

Université de Sherbrooke

**Les parents et leur enfant à risque de trouble du spectre de l'autisme bénéficient d'un
programme d'accompagnement parental**

Par
Audrée Jeanne Beaudoin
Programme de sciences cliniques

Thèse présentée à la Faculté de médecine et des sciences de la santé
en vue de l'obtention du grade de philosophiae doctor (Ph.D.)
en sciences cliniques

Sherbrooke, Québec, Canada
Janvier 2018

Membres du jury d'évaluation
Mélanie Morin, pht., Ph.D., présidente de jury, École de Réadaptation
Mélanie Couture, erg., Ph.D., directrice de thèse, École de Réadaptation
Guillaume Sébire, MD, Ph.D., co-directeur de thèse, Department of Pediatrics, Faculty of
Medicine, McGill University
Mayada Elsabbagh, Ph.D., évaluatrice externe au programme, Department of Psychiatry,
Faculty of Medicine, McGill University
Annie Stipanivic, Ph.D., évaluatrice externe à l'Université, Département de psychologie,
Université du Québec à Trois-Rivières

© Audrée Jeanne Beaudoin, 2018

SOMMAIRE

Les parents et leur enfant à risque de trouble du spectre de l'autisme bénéficient d'un programme d'accompagnement parental

Par

Audrée Jeanne Beaudoin

Programme de sciences cliniques

Thèse présentée à la Faculté de médecine et des sciences de la santé en vue de l'obtention du diplôme de philosophiae doctor (Ph.D.) en sciences cliniques, Faculté de médecine et des sciences de la santé, Université de Sherbrooke, Sherbrooke, Québec, Canada, J1H 5N4

L'augmentation du nombre d'enfants avec un trouble du spectre de l'autisme (TSA) accroît les demandes sur le réseau de la santé et des services sociaux du Québec. Les programmes d'accompagnement parental semblent une alternative intéressante pour répondre aux besoins des familles ayant un jeune enfant avec un diagnostic ou une suspicion de TSA. Par contre, peu de chercheurs se sont intéressés à l'expérience des parents qui sont pourtant les acteurs-clés de ce type d'intervention. Cette étude mixte séquentielle explicative vise à évaluer un programme d'accompagnement parental de 12 semaines pour des enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA en considérant autant les effets sur l'enfant que son parent. **Méthodologie :** Pour le volet quantitatif (essai clinique randomisé croisé), les 19 dyades parent-enfant ont été randomisées dans le groupe Intervention (immédiatement) ou le groupe Liste d'attente qui devait attendre trois mois avant de recevoir l'intervention. Les données collectées via des questionnaires et par observation directe réalisés trois à quatre fois en fonction du groupe de randomisation ont été analysées à l'aide de statistiques descriptives, de comparaisons inter- et intra-groupe. Pour le volet qualitatif (exploratoire), une analyse thématique a été complétée pour le contenu des entrevues semi-dirigées effectuées auprès d'un sous-échantillon de 6 parents. **Résultats :** Globalement, le programme a été fortement apprécié (score médian = 3,625/4). Plus spécifiquement, le programme met en évidence un effet positif significatif de l'intervention sur l'engagement dyadique ($p = 0,012$; taille d'effet = 0,51). De plus, les habiletés cognitives ($p = 0,010$; taille d'effet = 0,57) et motrices ($p = 0,071$; taille d'effet = 0,38) des enfants se normalisent suite à la participation au programme. La quasi-absence d'effet sur le bien-être parental pourrait être améliorée en offrant davantage de soutien directement aux parents pendant les interventions plutôt que de se concentrer uniquement sur le développement des habiletés nécessaires à la stimulation de leur enfant. **Conclusion :** L'intervention d'accompagnement parental a eu des effets bénéfiques prometteurs sur la variable proximale (interactions parent-enfant) et, dans une moindre mesure, sur les variables distales (développement de l'enfant, bien-être parental et validité sociale). L'intervention gagnerait toutefois à être bonifiée afin de mieux répondre aux besoins de soutien des parents.

Mots clés : trouble du spectre de l'autisme, coaching, parent, intervention précoce, interactions parent-enfant, *Early Start Denver Model*, *SCERTS Model*

SUMMARY

Parents and their child suspected of autism spectrum disorder benefit from a parent coaching intervention

By

Audrée Jeanne Beaudoin
Clinical sciences Program

A thesis presented to the Faculty of Medicine and Health Sciences in partial fulfillment of the requirements of the degree of Doctor of Philosophy in Clinical sciences, Faculty of Medicine and Health Sciences, Université de Sherbrooke, Sherbrooke, Québec, Canada, J1H 5N4

The increase in the prevalence of autism spectrum disorder (ASD) puts pressure on the healthcare system. Parent-mediated interventions are an interesting alternative to answer the needs of families having a toddler with a diagnosis or a suspicion of ASD. However, few researchers have looked at parents' experience during parent-mediated interventions even though parents are the main actors of these interventions. This sequential explanatory mixed study aims to evaluate a 12-week parent-mediated intervention for young children with a suspicion of ASD aged between 12 and 30 months by considering both parents' and children's outcomes. **Methods:** For the quantitative part (crossover randomized controlled trial), the 19 parent-child dyads were randomized either in the Intervention group or the Waitlist group (participants in this group had to wait three months before getting access to the intervention). Data were collected through questionnaires and direct observation three to four times depending on the group allocation. Quantitative data were analyzed using descriptive statistics as well as between and within group comparisons. For the qualitative part (exploratory), semi-directed interviews conducted with a subsample of six participants were analyzed thematically. **Results:** The program was globally highly appreciated (median score = 3.625/4). Specifically, there was a significant positive effect of the intervention on parent-child dyadic engagement ($p = .012$; effect size = .51). Furthermore, there was a normalization of children's cognitive ($p = .010$; effect size = .57) and motor abilities ($p = .071$; effect size = .38) after the 12-week program. The near absence of effect on parental well-being could be fixed by targeting specifically parental support rather than focusing on their skills development. **Conclusion:** The parent-mediated intervention brings promising benefits on the proximal outcome (parent-child interactions) and, to a lesser extent, on distal outcomes (children development, parental well-being and social validity). Still, the intervention should be adapted to better answer parental needs.

Keywords : autism spectrum disorder, parent-mediated intervention, coaching, parent, early intervention, parent-child interactions, *Early Start Denver Model*, *SCERTS Model*

TABLE DES MATIÈRES

| | |
|--|----|
| Introduction | 1 |
| Trouble du spectre de l'autisme | 1 |
| Dépistage, identification et intervention précoces du TSA | 2 |
| Chapitre 1. Recension des écrits | 4 |
| 1.1 Interventions précoces chez les enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA | 4 |
| 1.1.1 Développement des interventions précoces globales pour enfants avec un TSA | 6 |
| 1.1.2 Importance des interventions précoces chez les enfants avec un TSA | 15 |
| 1.1.3 Interventions précoces chez les enfants avec un TSA au Québec | 17 |
| 1.2 Implication des parents dans l'intervention précoce auprès des jeunes enfants avec un TSA | 19 |
| 1.2.1 Meilleures pratiques quant à l'implication des parents dans l'intervention précoce chez les enfants avec un TSA | 20 |
| 1.2.2 Implication des parents dans l'intervention précoce chez les enfants avec un TSA au Québec | 22 |
| 1.3 Accompagnement des parents ayant des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA | 22 |
| 1.3.1 Recension des interventions de type accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA | 26 |
| Article 1: <i>Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder</i> | 26 |
| 1.3.2 Accompagnement parental pour des enfants avec un TSA au Québec..... | 72 |
| 1.3.3 Programme d'accompagnement parental de la thèse..... | 73 |
| Chapitre 2. Objectifs, hypothèses et cadre de recherche | 79 |
| 2.1 Question et objectifs de recherche | 79 |

| | |
|---|-----|
| 2.2 Hypothèse de recherche | 80 |
| 2.3 Cadre de recherche | 82 |
| Article 2: <i>How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model</i> | 83 |
| Chapitre 3. Méthodologie | 113 |
| 3.1 Devis de recherche | 113 |
| 3.2 Participants | 116 |
| 3.3 Interventions | 122 |
| 3.3.1 Programme d'accompagnement parental | 122 |
| 3.3.2 Traitement usuel | 126 |
| 3.4 Collecte de données et suivi | 126 |
| 3.5 Variables et instruments de mesure | 128 |
| 3.5.1 Outils de mesure pour caractériser l'échantillon | 128 |
| 3.5.2 Outils de mesure de l'interaction parent-enfant | 133 |
| 3.5.3 Outils de mesure du bien-être parental | 135 |
| 3.5.4 Outils de mesure du développement de l'enfant suspecté de TSA | 136 |
| 3.5.5 Outils de mesure de la validité sociale du programme | 138 |
| 3.5.6 Outils de mesure qualitative | 139 |
| 3.6 Taille de l'échantillon | 140 |
| 3.6.1 Taille d'échantillon pour l'essai randomisé croisé | 140 |
| 3.6.2 Taille d'échantillon pour l'entrevue qualitative | 142 |
| 3.7 Analyse des données | 142 |
| 3.7.1 Analyse des données caractérisant l'échantillon | 142 |
| 3.7.2 Analyse des données quantitatives | 142 |
| 3.7.3 Analyse des données qualitatives | 147 |
| 3.7.4 Intégration des données quantitatives et qualitatives | 148 |
| 3.8 Considérations éthiques | 149 |

| | |
|---|-----|
| Chapitre 4. Résultats | 152 |
| Article 3: <i>Parent-mediated intervention increasing parent-child engagement and improving cognitive and behavioural outcomes of toddlers with autism spectrum disorder positive screening: A randomized crossover trial</i> | 153 |
| Article 4: <i>Impact on parental well-being of a parent-mediated intervention for toddlers suspected of autism spectrum disorder: A mixed methods study</i> | 184 |
| Chapitre 5. Discussion | 214 |
| 5.1 Sommaire des effets du programme d’accompagnement parental par rapport aux autres programmes étudiés dans la littérature | 214 |
| 5.2 Validité du modèle logique du programme d’accompagnement parental..... | 217 |
| 5.2.1 Interactions parent-enfant | 221 |
| 5.2.2 Développement de l’enfant | 223 |
| 5.2.3 Bien-être parental | 226 |
| 5.2.4 Validité sociale | 227 |
| 5.2.5 Améliorations suggérées | 231 |
| 5.3 Forces, limites et retombées cliniques de l’intervention novatrice | 232 |
| 5.3.1 Adaptation du programme d’accompagnement parental | 233 |
| 5.3.2 Adéquation avec les besoins du réseau de la santé et des services sociaux | 236 |
| 5.3.3 Expérience des parents..... | 238 |
| 5.3.4 Diversité socioculturelle et socioéconomique..... | 239 |
| 5.4 Forces, limites et retombées scientifiques du projet de recherche | 240 |
| 5.4.1 Devis mixte de recherche | 241 |
| 5.4.2 Évaluation de programmes | 245 |
| 5.4.3 Intervention près de la réalité clinique | 246 |
| Conclusion | 248 |
| Liste des références | 249 |
| Annexes | |
| Annexe 1 : Questionnaire sociodémographique | 277 |
| Annexe 2 : Échantillon du journal de bord | 280 |

| | |
|--|-----|
| Annexe 3 : Grille des services reçus | 282 |
| Annexe 4 : Guide d'entrevue | 287 |

LISTE DES TABLEAUX

| | | |
|------------|--|-----|
| Tableau 1 | Quatre principales catégories d'intervention précoce pour des jeunes enfants avec un TSA | 5 |
| Tableau 2 | Comparaison des caractéristiques principales des interventions comportementales et des interventions sociopragmatiques développementales | 11 |
| Tableau 3 | Description des études publiées entre 2014 et 2017 étudiant les effets de programmes d'accompagnement parental pour des très jeunes enfants avec un TSA..... | 64 |
| Tableau 4 | Effets des programmes d'accompagnement parental pour des très jeunes enfants avec un TSA en fonction des résultats d'études publiées entre 2014 et 2017..... | 68 |
| Tableau 5 | Institutions et programmes de santé et services sociaux ayant collaboré au recrutement de familles avec un enfant à risque de TSA | 119 |
| Tableau 6 | Thématiques des 12 sessions d'intervention | 123 |
| Tableau 7 | Services reçus pendant la participation des familles au projet de recherche..... | 133 |
| Tableau 8 | Accord interjuge aux mesures d'interaction parent-enfant | 135 |
| Tableau 9 | Processus d'analyse des données quantitatives | 144 |
| Tableau 10 | Comparaison du programme d'accompagnement parental aux autres programmes populaires pour les enfants de moins de 3 ans avec une suspicion ou un diagnostic de TSA..... | 215 |

Tableaux de l'article 1

| | | |
|----------------|---------------------------------------|-----------|
| <i>Table 1</i> | <i>Description of studies</i> | <i>35</i> |
| <i>Table 2</i> | <i>Effects of interventions</i> | <i>43</i> |

Tableaux de l'article 3

| | | |
|----------------|--|------------|
| <i>Table 1</i> | <i>Parents' fidelity of implementation</i> | <i>160</i> |
| <i>Table 2</i> | <i>Developmental status and sociodemographic data at baseline</i> | <i>166</i> |
| <i>Table 3</i> | <i>Change in parent-child and children outcomes between T1 and T2 separately for both groups</i> | <i>168</i> |
| <i>Table 4</i> | <i>Between groups comparison of parent-child and children change between T1 and T2</i> | <i>169</i> |
| <i>Table 5</i> | <i>Evolution of children and parent-child outcomes for all participants (both groups merged)</i> | <i>171</i> |

Tableaux de l'article 4

| | | |
|----------------|---|------------|
| <i>Table 1</i> | <i>Sociodemographic data at baseline</i> | <i>194</i> |
| <i>Table 2</i> | <i>Sociodemographic data for the 6 families who completed the qualitative interview</i> | <i>195</i> |

| | | |
|----------------|--|------------|
| <i>Table 3</i> | <i>Parental well-being at T1 and T2 for both groups</i> | <i>197</i> |
| <i>Table 4</i> | <i>Evolution of parental well-being for all participants (two groups merged)</i> | <i>199</i> |
| <i>Table 5</i> | <i>Other suggestions made by parents to enhance the parent-mediated intervention</i> | <i>204</i> |

LISTE DES FIGURES

| | | |
|----------|--|-----|
| Figure 1 | Taxonomie des programmes d'accompagnement parental en TSA | 24 |
| Figure 2 | Modèle logique du programme d'accompagnement parental | 81 |
| Figure 3 | Déroulement du projet de recherche | 115 |
| Figure 4 | Modèle logique adapté du programme d'accompagnement parental | 220 |

Figures de l'article 2

| | | |
|-----------------|--|------------|
| <i>Figure 1</i> | <i>Representation of the mechanisms of the effects of early interventions for children with ASD</i> | <i>95</i> |
| <i>Figure 2</i> | <i>Emerging theoretical framework of parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions for toddlers with suspected or diagnosed ASD.....</i> | <i>101</i> |

Figure de l'article 3

| | | |
|-----------------|---------------------------|------------|
| <i>Figure 1</i> | <i>Flow diagram</i> | <i>164</i> |
|-----------------|---------------------------|------------|

Figures de l'article 4

| | | |
|-----------------|--|------------|
| <i>Figure 1</i> | <i>Illustration of qualitative results concerning parental perspectives of their participation in the parent-mediated intervention</i> | <i>200</i> |
|-----------------|--|------------|

LISTE DES ABRÉVIATIONS

| | |
|-------------|--|
| ADI-R | <i>Autism Diagnosis Interview – Revised</i> |
| ADOS-T | <i>Autism Diagnosis Observation Schedule – Toddler module</i> |
| ASD | <i>Autism spectrum disorder</i> |
| CHUS | Centre hospitalier universitaire de Sherbrooke |
| CIC | Corrélation intraclasse |
| CISSS | Centre intégré de santé et de services sociaux |
| CIUSSS | Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux |
| CRDITED | Centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement |
| CSQ | <i>Client Satisfaction Questionnaire – 8</i> |
| CSSS | Centre de santé et de services sociaux |
| DIR | <i>Developmental Intervention Response</i> |
| DSM 5 | <i>Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 5</i> |
| ESDM | <i>Early Start Denver Model</i> |
| iBASIS-VIPP | <i>Intervention in the British Autism Study in Infant-Video Interaction for Promoting Positive Parenting</i> |
| ICI | Intervention comportementale intensive |
| INESSS | Institut national d'excellence en santé et en services sociaux |
| ITC | <i>Infant-Toddler Checklist</i> |
| JASPER | <i>Joint Attention, Symbolic Play, Engagement, and Regulation</i> |
| M-CHAT-R | <i>Modified Checklist for Autism in Toddlers – Revised</i> |
| MSSS | Ministère de la Santé et des Services Sociaux |
| PACT | <i>Pre-School Autism Communication Therapy</i> |
| PRT | <i>Pivotal response training</i> |
| PSI | <i>Parenting Stress Index</i> |
| PSOC | <i>Parenting Sense of Competence</i> |
| SCERTS | <i>Social Communication Emotional Regulation Transaction Support</i> |
| TSA | Trouble du spectre de l'autisme |

*À tous les participants au projet de recherche
sans qui cette thèse n'aurait pas été possible.*

*Tu me dis, j'oublie.
Tu m'enseignes, je me souviens.
Tu m'impliques, j'apprends.
- Benjamin Franklin -*

REMERCIEMENTS

Je tiens à remercier, dans un premier temps, mon équipe direction : Mélanie et Guillaume. Merci à Mélanie de m'avoir pris sous ton aile. Tu es pour moi un modèle à suivre, et ce, tant au plan professionnel que personnel. Merci à Guillaume de m'avoir fait apprécier la rigueur scientifique.

Merci également aux professeurs de la Faculté de médecine et des sciences de la santé qui ont été des mentors à un moment ou à un autre de mon parcours aux études graduées : Chantal Camden, Jean-Paul Praud et Johanne Desrosiers. Votre support apporté lors de moments clé a été essentiel à ma réussite.

Merci aux organismes subventionnaires qui m'ont soutenue au cours de ce doctorat : Programme canadien de cliniciens chercheurs en santé de l'enfant, Centre de recherche Mère-Enfant, Axe de recherche Mère-Enfant du Centre de recherche du CHUS, Fondation des Étoiles et Consortium national de recherche en intégration sociale.

Merci à mes collègues avec qui j'ai partagé les dernières années au laboratoire GRAND-Réadaptation : Camille, Karen, Véronique, Lucia, Haifa, Marilyn, Gabrielle, Chloé, Mélissa, Jade et Élodie. Merci à mes collègues et amis de la faculté pour votre écoute, votre collaboration et vos encouragements.

Merci à tous les cliniciens du réseau de la santé et des services sociaux qui ont cru en l'importance du projet et m'ont épaulé dans le recrutement de familles. Un merci spécial à Caroline Hamel et aux professionnels du Centre de réadaptation en déficience intellectuelle et trouble envahissant du développement qui m'ont accordé leur confiance.

Merci à tous les participants au projet de recherche qui ont tous enrichi les connaissances sur les programmes d'accompagnement parental et les besoins des familles ayant un enfant avec une suspicion de trouble du spectre de l'autisme.

Finalement, je tiens à exprimer ma gratitude aux membres de ma famille. Merci à Guy, Claudette, Marie-Soleil et Eve-Léa pour le soutien dans ce projet, les encouragements, les conseils et les pauses bien méritées. Merci à Jonathan pour ta patience, ton réconfort et tes bons repas! Et merci à Charlie de me faire expérimenter à mon tour le rôle de maman.

INTRODUCTION

Trouble du spectre de l'autisme

Le trouble du spectre de l'autisme (TSA) est défini dans le *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 5* (DSM-5) par des difficultés dans les interactions sociales et la communication ainsi que par la présence de comportements stéréotypés et d'intérêts restreints (American Psychiatric Association, 2013). Ce diagnostic de TSA fusionne plusieurs diagnostics antérieurs listés sous l'appellation de trouble envahissant du développement (auparavant subdivisé en trouble autistique ou autisme, syndrome d'Asperger, trouble envahissant du développement non spécifié et syndrome désintégratif de l'enfance) à l'exception du syndrome de Rett qui reste une entité diagnostique du DSM-5.

Outre le fardeau psychofamilial que le TSA constitue, son coût social est d'environ 1,4 million de dollars américains pour soutenir une personne avec un TSA sans déficience intellectuelle (et 2,3 millions de dollars par personne avec un TSA et une déficience intellectuelle) au cours de sa vie aux États-Unis et au Royaume-Uni (Buescher et al., 2014). Selon les données des États-Unis, le coût relié à la prise en charge des personnes ayant TSA représenterait de 35 à 90 milliards de dollars par année, soit un montant s'approchant de celui de la maladie d'Alzheimer (Ganz, 2007; Knapp, Romeo, & Beecham, 2009). Ces coûts importants sont principalement liés aux services d'éducation spécialisés offerts aux enfants avec un TSA, à la perte de productivité des parents, aux services résidentiels nécessaires à l'âge adulte et à la moindre productivité des adultes présentant un TSA (Buescher et al., 2014).

Il y a 20 ans, l'autisme était peu connu et était considéré comme une condition rare. Aujourd'hui, avec une prévalence estimée aux États-Unis à 1/68 (Centers for Disease Control and Prevention, 2016) et au Québec à 1/74 (Noiseux, 2017), le TSA est parmi les formes les plus fréquentes et graves de troubles du développement. Au Québec, et ailleurs, l'augmentation incessante du nombre d'enfants diagnostiqués a créé une réelle urgence nationale en santé. Cette augmentation de la prévalence mène indéniablement à une augmentation des demandes de services et exerce une pression accrue sur le système de santé et de services sociaux publics québécois dont les ressources sont limitées (Institut national

d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Dans cette circonstance, les organisations responsables d'offrir des interventions précoces aux enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA doivent faire preuve de créativité pour répondre à ces besoins grandissants.

Dépistage, identification et intervention précoce

En se basant sur les propos des parents qui rapportaient avoir eu leurs premières inquiétudes concernant le développement de leur enfant autour de 12 à 18 mois (Zwaigenbaum et al., 2009), souvent en lien avec l'apparition tardive du langage (De Giacomo & Fombonne, 1998; Stone et al., 2004), l'identification très précoce des enfants avec un TSA est en émergence. Les connaissances actuelles permettent ainsi d'identifier certains enfants avec un TSA dans les deux premières années de vie sur la base de comportements sociocommunicatifs (Zwaigenbaum, 2005). Parmi les marqueurs comportementaux précoces étudiés, notons des traits d'hyper- ou hypo-réactivité aux stimuli sensoriels (Baranek, 1999; Bryson et al., 2007; Landa, 2007; Wetherby et al., 2004; Zwaigenbaum et al., 2005), des mouvements ou activités répétitifs, des difficultés sociocommunicatives, particulièrement au niveau de l'interaction sociale, du langage, de l'attention conjointe et de la régulation émotionnelle (Barbaro et Dissanayake, 2012; Gaines et al., 2011; Maestro et al., 2002; Miller et al., 2011; Oosterling et Dawson, 1994; Ventola et al., 2007; Volkmar, Chawarska, et Klin, 2005; Zwaigenbaum et al., 2005), des particularités motrices (Flanagan et al., 2012; Landa et Garrett-Mayer, 2006; Loh et al., 2007; Zwaigenbaum et al., 2005), des difficultés sur le plan ludique (Gaines et al., 2011; Landa, 2007; Wetherby et al., 2004; Zwaigenbaum et al., 2005), ainsi que des troubles du sommeil et de l'alimentation (Young, Brewer, et Pattison, 2003). La faisabilité et l'utilité de questionnaires de dépistage formels afin d'identifier les nourrissons à risque d'un TSA sont maintenant reconnues, et ce, autant dans la population générale (Miller et al., 2011; Pierce et al., 2011) que parmi la population à haut risque de TSA telle la fratrie d'enfants déjà diagnostiqués avec un TSA (Dietz et al., 2006).

Maintenant qu'il est possible de poser un diagnostic valide de TSA avant l'âge de deux ans, le développement d'interventions pour les nourrissons avec un TSA est une priorité. Néanmoins, la majorité des études publiées sur l'intervention auprès d'enfants avec un TSA rapportent l'effet d'intervention intensive pour des enfants d'âge préscolaire (trois à cinq ans)

et scolaire (six à 12 ans) (Hume & Odom, 2011). Considérant que les enfants de moins de 3 ans diffèrent des enfants d'âge préscolaire au niveau de leurs caractéristiques sociales et d'apprentissage (Kagan, 2008; Rogers & Wallace, 2011), on ne peut pas simplement utiliser les interventions démontrées comme efficaces chez les enfants plus âgés pour les appliquer chez les jeunes enfants, ou du moins sans avoir apporté des adaptations majeures (Rogers & Wallace, 2011). Ainsi, malgré leur efficacité reconnue chez la clientèle préscolaire, particulièrement à partir de l'âge de 3 ans, les interventions individuelles intensives sont dispendieuses, prennent beaucoup de temps et sont peu adaptées aux besoins des nourrissons avant l'âge de 3 ans (Rogers & Wallace, 2011).

Les stratégies d'accompagnement parental sont des alternatives moins intensives et mieux adaptées aux capacités d'apprentissage des enfants de moins de trois ans. Les programmes d'accompagnement parental permettent d'augmenter le nombre d'heures d'exposition de l'enfant à une stimulation appropriée, et ce, dans un contexte naturel et signifiant (Beaudoin et al., 2014; Oono et al., 2013; Rogers & Wallace, 2011). Toutefois, peu d'études s'intéressent à la perspective des parents qui ont un rôle central dans l'implantation de programmes d'accompagnement parental chez de très jeunes enfants avec un TSA (Beaudoin et al., 2014). Ainsi, cette étude vise à évaluer les effets d'un programme d'accompagnement parental de 12 semaines, basé sur deux modèles d'intervention déjà existant, pour des enfants avec une suspicion de TSA âgés de 12 à 30 mois jusqu'à trois mois après l'intervention en mettant l'accent sur le rôle crucial des parents qui sont les acteurs-clés de ce type d'intervention.

CHAPITRE 1. RECENSION DES ÉCRITS

Ce chapitre présente l'état des connaissances sur les principaux thèmes découlant de la problématique sur laquelle s'est bâti le projet doctoral, soit 1) les caractéristiques des interventions précoces chez les enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA, 2) l'importance de l'implication des parents dans ces interventions et 3) l'accompagnement des parents ayant des jeunes enfants avec un TSA comme modalité d'intervention précoce. En plus de présenter un résumé des connaissances issues des écrits scientifiques, chaque sous-section se conclura en mettant en lumière les services offerts au Québec à la clientèle ayant un TSA. Ces sections traitant de la réalité québécoise en lien avec l'intervention précoce, l'implication des parents et l'accompagnement parental permettront de bien camper la situation dans laquelle se situe le projet doctoral, ce qui influença le développement du programme d'intervention, le déroulement du projet et les retombées potentielles.

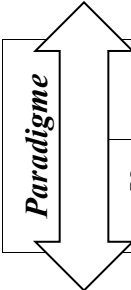
1.1 Interventions précoces chez les enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA

Actuellement, aucune définition du concept d'intervention précoce ne fait consensus dans la littérature. D'une part, certains auteurs considèrent les interventions auprès d'enfants d'âge préscolaire, soit entre 3 et 5 ans, comme des interventions précoces (Green et al., 2010; Oono et al., 2013; Silva et al., 2011; Tonge et al., 2006). D'autre part, étant donné la diminution de l'âge au dépistage et au diagnostic au cours des dernières années (Zwaigenbaum, 2005), il est maintenant possible d'intervenir avant l'âge de quatre ou cinq ans. Dans cette optique, une intervention précoce sera définie dans cette thèse comme un service de santé, éducatif ou social offert à un enfant de 3 ans ou moins. Cette définition concorde avec l'âge de la clientèle de très jeunes enfants de plus en plus étudiés dans les études d'intervention (Drew et al., 2002; Rogers et al., 2012a; Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Wetherby et al., 2006; Wong & Kwan, 2010).

Tel qu'illustré dans le tableau 1, le concept d'intervention précoce pour des jeunes enfants avec un TSA peut être divisé en quatre catégories en fonction de deux caractéristiques, soit la portée des habiletés ciblées et le paradigme sous-jacent à l'intervention.

Tableau 1

Quatre principales catégories d'intervention précoce pour des jeunes enfants avec un TSA

| | | Portée des habiletés ciblées | |
|--|---|--|--|
| | | Intervention focalisée | Approche globale |
|  Paradigme | Comportemental | Intervention focalisée comportementale | Approche globale comportementale |
| | Sociopragmatique développemental | Intervention focalisée sociopragmatique développementale | Approche globale sociopragmatique développementale |

Premièrement, pour ce qui est de la portée des habiletés ciblées, les approches peuvent être divisées : 1) en interventions focalisées qui adressent, sur une période de temps limitée, une ou quelques habileté(s) à développer chez les enfants avec un TSA (Odom et al., 2010a; Wong et al., 2015), et 2) en approches globales organisées autour d'un cadre conceptuel qui utilisent plusieurs composantes sur une période de temps étendue et de façon relativement intensive afin de développer des habiletés dans plusieurs domaines développementaux limités par le TSA (Hume & Odom, 2011; Wong et al., 2015). Considérant les recommandations d'interventions précoces à mettre en place chez les jeunes enfants avec un trouble développemental (Rogers & Wallace, 2011) et, plus spécifiquement pour favoriser le développement de ceux ayant d'un TSA (*National Research Council (U.S.) & Committee on Educational Interventions for Children with Autism*, 2001) seules les approches globales seront abordées dans le cadre de cette thèse. De fait, les interventions globales offrent l'avantage de cibler une multitude de domaines à développer tels que le langage, les habiletés motrices et l'autonomie (Rogers & Wallace, 2011).

Deuxièmement, les interventions précoces peuvent également être placées sur un continuum en fonction du paradigme dominant dont les deux pôles sont : 1) l'approche comportementale classique fortement structurée qui se base sur la répétition de tâches isolées par essais de masse (Ospina et al., 2008; Prizant & Wetherby, 1998), et 2) l'approche sociopragmatique développementale qui se caractérise par un apprentissage centré sur les interactions interpersonnelles qui suit les intérêts de l'enfant et qui est intégré dans les

activités quotidiennes et l'environnement naturel de l'enfant (Ospina et al., 2008; Prizant & Wetherby, 1998). La prochaine section traitera du développement des interventions précoces globales pour les enfants avec un TSA en fonction de ces deux pôles dominants.

1.1.1 Développement des interventions précoces globales pour enfants avec un TSA

Intervention précoce comportementale

L'efficacité des interventions en bas âge, (dès 3-4 ans) a été décrite en premier par Lovaas et ses collaborateurs (Lovaas, 1987), rapportant une récupération chez près de la moitié des enfants avec un TSA ayant reçu un traitement comportemental intensif pendant au moins deux ans (Lovaas, 1987). Depuis, plusieurs chercheurs ont étudié les interventions comportementales intensives précoces pour les jeunes enfants avec un TSA. En se basant sur la définition de Green et collaborateurs (Green et al., 2002), ces interventions comportementales intensives précoces sont caractérisées par :

- a) Une approche globale individualisée;
- b) Une analyse du comportement pour augmenter le répertoire de comportements fonctionnels et réduire les comportements problématiques;
- c) Une ou plusieurs personnes avec une formation avancée en analyse appliquée du comportement et de l'expérience au niveau de l'intervention avec les jeunes enfants présentant un TSA qui offrent l'intervention;
- d) La sélection des objectifs basée sur la séquence développementale typique;
- e) Une participation active des parents comme « co-thérapeute » pour leur enfant;
- f) Le traitement initialement offert en format individuel, puis en petits et grands groupes en fonction des besoins;
- g) Le traitement débutant typiquement à la maison, puis généralisé dans d'autres environnements;
- h) L'intervention offerte de façon intensive, incluant entre 20 et 30 heures de sessions structurées par semaine en plus de la pratique et l'apprentissage informel la majorité des heures éveillées de l'enfant, et ce, tout au long de l'année;
- i) Une durée de traitement usuellement de deux ans ou plus et;

- j) Un début de l'intervention typiquement lorsque les enfants sont d'âge préscolaire, soit entre trois et quatre ans (Green et al., 2002).

Depuis les premières publications de Lovaas et collègues (Lovaas, 1987; McEachin et al., 1993), grand nombre d'interventions comportementales intensives ont été développées et étudiées (Smith, 2011). De fait, parmi les 30 différentes approches globales répertoriées par Odom et collaborateurs en 2010, 20 interventions étaient des approches globales comportementales, dont la majorité visait une clientèle préscolaire. Parmi les interventions de type comportemental visant des jeunes enfants, notons qu'en plus de l'approche de *Lovaas Institute* (Lovaas, 1987; McEachin et al., 1993), on y retrouvait notamment l'approche *May Institute* (Campbell et al., 1998) et *Learning Experiences: an Alternative Program for Preschoolers and Parents* (Hoyson et al., 1984).

Les interventions comportementales précoces sont maintenant reconnues comme étant efficaces pour améliorer le développement global et le fonctionnement d'enfants avec un TSA âgés jusqu'à neuf ans (National Autism Center, 2015). De fait, bien que les études individuelles rapportent des effets inconstants des interventions comportementales classiques (Ospina et al., 2008), plusieurs revues de la littérature et méta-analyses publiées au cours des dernières années sur les interventions comportementales intensives précoces ont documenté des gains au niveau des habiletés cognitives (Eldevik et al., 2009; Howlin et al., 2009; Makrygianni & Reed, 2010; Ospina et al., 2008; Peters-Scheffer et al., 2011; Reichow et al., 2013; Vismara & Rogers, 2010; Warren et al., 2011), des comportements adaptatifs (Eldevik et al., 2009; Howlin et al., 2009; Makrygianni & Reed, 2010; Ospina et al., 2008; Peters-Scheffer et al., 2011; Reichow et al., 2013; Warren et al., 2011), des habiletés de la vie quotidienne (Reichow et al., 2013), de la communication (Howlin et al., 2009; Makrygianni & Reed, 2010; Ospina et al., 2008; Peters-Scheffer et al., 2011; Reichow et al., 2013; Vismara & Rogers, 2010; Warren et al., 2011), de la socialisation (Reichow et al., 2013) et du fonctionnement socioémotionnel (Vismara & Rogers, 2010). Il est toutefois important de souligner que la majorité des études analysées dans ces revues de la littérature et méta-analyses n'étaient pas des essais cliniques randomisés, mais majoritairement des études de cohorte. Parmi les 11 essais cliniques randomisés (Andrews et al., 1998; Collier & Reid,

1987; Dugan, 2006; Harris et al., 1982; Hilton, 2005; Nelson et al., 1980; Sallows et al., 2005; Sherman et al., 1988; Smith et al., 2000; White, 2000; Zifferblatt et al., 1977) répertoriés par Ospina et collaborateurs (2008), six études (55%) ne rapportaient aucun effet de l'intervention sur les différentes variables évaluées (Dugan, 2006; Harris et al., 1982; Hilton, 2005; Nelson et al., 1980; Sallows et al., 2005; Zifferblatt et al., 1977). Ainsi, les conclusions des études précédentes doivent être interprétées avec précaution puisqu'il est possible que les études qui n'étaient pas des essais cliniques randomisés aient mésestimé l'effet de l'intervention comportementale reçue (Ospina et al., 2008).

Malgré la grande popularité des approches comportementales intensives découlant des études de Lovaas et collaborateurs (Lovaas, 1987; McEachin et al., 1993), diverses critiques ont été émises quant aux méthodes employées lors de ces interventions de type comportemental. Parmi les critiques, notons:

- 1) Le contrôle principalement donné à l'adulte peut mettre l'enfant dans une situation de passivité qui interfère avec l'engagement et l'initiation spontanée de communications par les enfants (Prizant, 1982; Prizant & Wetherby, 1998; Schreibman & Ingersol, 2011; Smith, 2011);
- 2) La faible généralisation des comportements acquis dans le contexte très structuré (Koegel, 1995; Smith, 2011) manifesté par une absence de généralisation des stimuli (généralisation à d'autres personnes, situations ou contextes), de la réponse (changement dans des comportements reliés) et dans le temps (maintien des acquis) (Schreibman & Ingersol, 2011);
- 3) Le manque de reconnaissance des modalités de communication autre que le langage parlé (Prizant et Wetherby, 1998);
- 4) L'inclusion minimale d'opportunités d'interagir et d'apprendre via des interactions avec les pairs sans TSA (Prizant et Wetherby, 1998);
- 5) En ciblant des habiletés clairement définies, les approches comportementales n'adressent pas certains comportements complexes qui sont des déficits majeurs liés au TSA, incluant l'attention conjointe, l'initiation de la communication, l'expression des émotions et le jeu symbolique (Prizant et Wetherby, 1998);

- 6) L'intervention qui n'est souvent pas plaisante, ni pour le thérapeute ni pour l'enfant, peut générer des problèmes de comportements chez l'enfant afin d'échapper ou d'éviter les tâches (Schreibman & Ingersol, 2011) et;
- 7) Les techniques spécifiques et fortement structurées sur lesquelles repose l'intervention sont difficiles à apprendre pour les parents puisque les règles strictes de l'intervention comportementale altèrent les interactions parent-enfant qui ne sont alors plus naturelles comme avec un enfant typique (Schreibman et Ingersol, 2011).

Intervention précoce sociopragmatique développementale

En réponse aux limites des approches de type comportementales, des programmes de type sociopragmatique développemental ont été développés à partir de la fin des années 1970 (Prizant et Wetherby, 1998; Schreibman et Ingersol, 2011). À l'opposé de l'approche de Lovaas, ces interventions mettent l'accent sur la spontanéité de l'enfant et l'adulte qui suit le centre d'attention et les motivations de l'enfant (Prizant et Wetherby, 1998). Les assises théoriques de ce type d'intervention se basent sur les évidences démontrant une association entre la sensibilité du parent et le développement du langage de l'enfant avec un TSA (Ingersoll et al., 2012; Siller et Sigman, 2008). De plus, les objectifs individualisés pour l'enfant se basent sur les forces et difficultés de chaque enfant ainsi que sur une séquence développementale typique (Vismara et Rogers, 2010). Selon Prizant et Wetherby (1998), les caractéristiques-clés de l'approche sociopragmatique développementale incluent :

- 1) Une structure flexible permettant l'enseignement spontané dans des activités et contextes variés et motivants pour l'enfant (Prizant et Wetherby, 1998);
- 2) L'accent est mis sur le développement d'un répertoire multimodal de communications, incluant des moyens appropriés pour acquérir du contrôle social (ex. : protester, faire des choix) pour prévenir des difficultés comportementales (Prizant et Wetherby, 1998);
- 3) L'interaction est caractérisée par un contrôle partagé, un tour de rôle et une réciprocité entre l'adulte et l'enfant (Prizant & Wetherby, 1998);
- 4) La considération des tentatives de communication de l'enfant notamment en ciblant la réceptivité de l'adulte aux communications verbales et non verbales (Ingersoll et al., 2012; Prizant et Wetherby, 1998);

- 5) L'utilisation de groupes sociaux pour offrir des expériences sociales complexes à l'enfant (Prizant et Wetherby, 1998);
- 6) L'intervention est structurée en fonction de la séquence développementale normale (Prizant et Wetherby, 1998; Vismara et Rogers, 2010);
- 7) L'adaptation environnementale (ex. : visuelle et gestuelle) pour aider l'enfant à comprendre les activités et interactions (Prizant et Wetherby, 1998) et ;
- 8) L'expression des émotions et le partage de l'affect sont centraux au processus d'apprentissage et d'interaction (Prizant et Wetherby, 1998).

Le tableau 2 fait ressortir sept éléments-clés distinguant les interventions comportementales et les interventions sociopragmatiques développementales (Delprato, 2001; Schreibman et Ingersol, 2011)

Tableau 2

Comparaison des caractéristiques principales des interventions comportementales et des interventions sociopragmatiques développementales

| | Interventions comportementales | Interventions sociopragmatiques développementales |
|---|---|--|
| Contexte d'enseignement | Environnement très structuré | Environnement peu structuré |
| Directivité de l'enseignement | Enseignement direct, souvent à la table | Enseignement indirect dans des environnements variés, souvent en contexte de jeu |
| Stimuli | Le thérapeute initie et contrôle l'épisode d'apprentissage; l'antécédent est choisi et initié par le thérapeute jusqu'à ce que l'enfant réussisse | L'enfant initie l'épisode d'apprentissage en indiquant son intérêt; l'antécédent est choisi par l'enfant et varie fréquemment |
| Comportement cible | Le comportement cible est divisé en sous-habiletés qui sont enseignées de façon séquentielle | L'apprentissage se fait dans les interactions entre l'enfant et le thérapeute; pas d'ordre particulier de comportements cibles à travailler dans une session |
| Incitation | Incitation explicite par le même indice pour un comportement cible | Incitation explicite du comportement cible par une variété de stratégies en fonction des réponses de l'enfant |
| Renforcements | Renforcements qui ne sont pas fonctionnellement reliés au comportement cible et qui varient peu entre les séances d'enseignement | Renforcements naturels reliés au comportement cible de l'enfant et qui varient selon le contexte |
| Critère pour obtenir un renforcement | L'enfant reçoit un renforcement pour une réponse correcte ou plusieurs approximations successives | Les tentatives de réponse de la part de l'enfant sont récompensées, et non pas seulement la réussite |

Dans la revue de la littérature d'Odom et collaborateurs (2010), sept des 30 programmes globaux d'intervention répertoriés étaient de type sociopragmatique développemental. Parmi les interventions visant des jeunes enfants, notons entre autres l'approche de Denver (Rogers et al., 2006), le *Developmental Intervention Response* (DIR) (Solomon et al., 2007), l'approche Hanen (McConachie et al., 2005) et le *Social Communication Emotional Regulation Transaction Support* (SCERTS) (Prizant et al., 2006).

Ces interventions sociopragmatiques développementales précoces sont considérées, selon le rapport du *National Autism Center* (2015) comme une stratégie en émergence, c'est-à-dire que, contrairement aux interventions comportementales, davantage d'études de bonne qualité doivent être publiées afin d'être en mesure de conclure sur les effets de l'intervention malgré que certaines études rapportant des résultats positifs (*National Autism Center*, 2015). Contrairement aux interventions comportementales qui sont bien soutenues par des données scientifiques, les interventions de type de sociopragmatique développementale nécessitent encore la publication de données probantes afin de soutenir leur utilisation auprès de la clientèle présentant un TSA (*National Autism Center*, 2015). Néanmoins les interventions sociopragmatiques développementales présentent également leurs forces. De fait, une comparaison des deux types d'intervention rapportait des gains supérieurs au niveau de la communication expressive ainsi qu'un affect parental plus positif lors d'interventions sociopragmatiques développementales (Delprato, 2001).

Parmi les bénéfices rapportés dans la littérature, notons notamment (Mahoney & Perales, 2005) une amélioration significative des habiletés cognitives, communicatives et socioémotionnelles des jeunes enfants avec un TSA (85% des enfants âgés de moins de 36 mois) observée après un an de sessions hebdomadaires d'une intervention précoce basé sur le développement de la relation entre un parent et son enfant (Mahoney & Perales, 2005). De plus, des améliorations importantes ont été démontrées en ce qui a trait au développement global, aux symptômes autistiques et aux habiletés socioémotionnelles des enfants d'âge préscolaire suite à la formation de leurs parents à l'approche *DIR/Floortime* (Pajareya & Nopmaneejumruslers, 2011). Finalement, l'étude de McConachie et collaborateurs (2005) a évalué l'effet du programme de formation aux parents *More than Words* qui vise à développer les capacités des parents à interagir avec leur enfant de 24 et 48 mois avec un TSA en utilisant des stratégies sociopragmatiques développementales (ex. : observation de leur enfant, engagement avec leur enfant dans des routines, utilisation des opportunités naturelles dans la vie quotidienne pour développer l'attention conjointe). Les résultats ont démontré que ce programme permet d'améliorer l'utilisation par les parents des stratégies en plus d'avoir un effet positif sur le vocabulaire des enfants (McConachie et al., 2005). Par contre, aucun changement n'a été rapporté au niveau des habiletés sociales ou du

comportement de l'enfant, ni au niveau de l'adaptation ou du stress parental (McConachie et al., 2005).

Également, il est important de souligner les limites relevées dans la littérature au niveau des approches sociopragmatiques développementales, notamment :

- 1) L'inconstance possible au niveau de l'intensité des opportunités d'apprentissage (Prizant & Wetherby, 1998);
- 2) Les renforcements sociaux utilisés peuvent ne pas être suffisamment constants ou puissants pour maintenir l'attention de certains enfants (Prizant & Wetherby, 1998);
- 3) Le manque de contrôle sur l'environnement (ex. : répétition, structure et limité les distractions) peut limiter la capacité à intervenir avec des enfants avec des difficultés attentionnelles majeures (Prizant & Wetherby, 1998);
- 4) La faible documentation du progrès de l'intervention (Prizant & Wetherby, 1998) et;
- 5) L'aspect non prescriptif de l'intervention peut limiter certains parents ou intervenants qui nécessitent une structure claire d'enseignement à utiliser les différentes stratégies (Prizant & Wetherby, 1998).

Intégration de stratégies comportementales et sociopragmatiques développementales

Aucune supériorité claire n'a pu être démontrée entre les deux pôles dominants d'intervention (Prizant & Wetherby, 1998). Selon une méta-analyse comparant l'approche classique d'intervention comportementale telle que décrite par Lovaas à l'approche *DIR* qui est une intervention de type sociopragmatique développementale, aucune différence ne s'est avérée significative (Ospina et al., 2008). Il faut toutefois encore être vigilant dans l'interprétation des résultats considérant notamment que cette méta-analyse s'est basée sur seulement deux études comparatives entre ces méthodes d'intervention.

À la suite de l'exploration des deux pôles d'intervention, les plus récents programmes se situent entre ces deux pôles (Ospina et al., 2008; Prizant & Wetherby, 1998). Ces approches contemporaines incorporent donc à la fois des techniques comportementales (ex. : enseignement de comportement de remplacement) et des aspects sociopragmatiques

développementaux en utilisant les interactions sociales naturelles initiées par l'enfant comme des opportunités d'apprentissage (Prizant & Wetherby, 1998). Ainsi, la vision contemporaine des interventions précoces globales pour les enfants avec un TSA a délaissé la conception traditionnelle antagoniste des deux paradigmes vers une conception complémentaire des interventions comportementales et des interventions sociopragmatiques développementales (Smith, 2011). Dans cette optique, les programmes récents, peu importe leur paradigme dominant, se ressemblent de plus en plus au point de complètement intégrer les meilleures évidences des deux approches (Debodinance et al., 2017; Rogers & Vismara, 2008).

En fonction de la littérature grandissante sur l'intégration des différents paradigmes, les meilleures pratiques favorisent dorénavant l'utilisation combinée de stratégies comportementales pour développer les habiletés sociocommunicatives des enfants avec un TSA ainsi que de stratégies dérivées des programmes sociopragmatiques développementaux afin de faciliter la réciprocité et l'engagement social (Stadnick et al., 2015). Schreibman et collaborateurs nomment cette nouvelle catégorie comme les interventions comportementales développementales naturalistiques (en anglais : *Naturalistic Developmental Behavioral Interventions*). Parmi les composantes communes à l'ensemble des interventions comportementales développementales naturalistiques, notons :

- 1) La structure d'enseignement antécédent-comportement-conséquence;
- 2) Les procédures d'intervention décrites dans un manuel d'intervention;
- 3) Une évaluation de la fidélité d'implantation de l'intervention;
- 4) Des objectifs d'intervention individualisés;
- 5) La collecte systématique de données permettant de suivre les progrès de l'enfant;
- 6) Des épisodes d'apprentissage initié par l'enfant pour assurer l'intérêt de l'enfant dans l'activité;
- 7) Des adaptations environnementales favorisant les interactions entre l'enfant et l'adulte;
- 8) Des renforcements naturels pour maintenir un haut niveau de motivation de l'enfant;
- 9) Des encouragements, de l'incitation et un retrait progressif de cette aide;
- 10) Du modelage pour démontrer ce qui est attendu de la part de l'enfant

- 11) De l'imitation de la part de l'adulte des comportements de l'enfant, incluant le langage, le jeu et les mouvements corporels de l'enfant (Schreibman et al., 2015)

Parmi les approches contemporaines connues qui incorporent les points forts de chaque pôle, on note notamment le *Pivotal response training* (PRT) (Koegel & Koegel, 2006). À titre d'exemple, le PRT a été créé afin de cibler les comportements pivots (*pivotal behaviors*) tels la motivation à apprendre ainsi que les habiletés à initier et répondre aux interactions sociales qui lorsque stimulés permettent le développement d'autres comportements qui ne sont pas spécifiquement ciblés par l'intervention (Koegel, 2000). Pour ce faire, le PRT utilise un modèle basé sur la collecte de données systématique caractéristique de l'approche comportementale en plus d'incorporer des stratégies positives centrées sur l'enfant et sa famille (Koegel, 2000).

Tel que le relève le *National Research Council* (2001), peu importe le paradigme dominant, la majorité des programmes utilisés présentent plusieurs similitudes au niveau de l'organisation, des intervenants et de l'utilisation de certaines stratégies. Par contre, les différences au niveau du paradigme sous-jacent au programme d'intervention se manifestent par une philosophie et des pratiques différentes, offrant ainsi plusieurs alternatives aux proches des enfants avec un TSA pour trouver une intervention qui convienne notamment à l'enfant et à sa famille (*National Research Council (U.S.) & Committee on Educational Interventions for Children with Autism*, 2001).

1.1.2 Importance des interventions précoces chez les enfants avec un TSA

La période entre 12 et 24 mois correspond à un changement important, lors du développement normal, vers des formes plus avancées de communication sociale. Les enfants avec un TSA auront alors de la difficulté à développer ces habiletés plus complexes. Ainsi, cette période est un moment crucial pour intervenir afin de faciliter le développement d'habiletés sociocommunicatives chez les enfants avec un TSA ou identifiés à risque de TSA (Steiner et al., 2013). De plus, l'intervention auprès d'un jeune enfant avec un TSA offre l'avantage que celui-ci présente moins de comportements perturbateurs et que son cerveau est dans une période de plasticité accrue (Dawson, 2008; DeBodinance et al., 2017; McEachin et al.,

1993). La littérature scientifique souligne qu'au cours des premières années de vie, les manifestations liées au TSA pourraient être particulièrement malléables (Rogers & Vismara, 2008), appuyant ainsi l'importance d'offrir des interventions précoces dès les premières années de vie. De fait, plus l'enfant est jeune au début de l'intervention, plus les gains développementaux rapportés dans les études sont significatifs et plus la réduction des symptômes autistiques est importante (Ganz, 2007; Zwaigenbaum et al., 2015). Même parmi les enfants en très bas âge, les gains sont plus marqués chez les enfants recevant une intervention à l'âge d'un an que chez ceux recevant la même intervention à deux ans (Rogers et al., 2012a). En tirant avantage de la période de la petite enfance pour optimiser le développement de l'enfant et ainsi réduire ses besoins par la suite, l'intervention précoce se veut donc une façon d'optimiser les services offerts aux jeunes enfants (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014), réduisant ainsi le fardeau financier lié à ces interventions (Järbrink & Knapp, 2001).

En fait, l'intervention précoce a le potentiel de modifier la trajectoire développementale anormale des jeunes enfants avec un TSA et de guider le développement cérébral et comportemental vers une évolution plus typique (Dawson, 2008; Dawson et al., 2012). Sachant que chaque expérience modifie la structure et la fonction du cerveau, les interventions qui ciblent les déficits majeurs des TSA fournissent des expériences qui visent l'optimisation des circuits neuraux des enfants ayant un TSA. Dans cette optique, les programmes d'intervention précoce s'adressant aux très jeunes enfants avec un TSA devraient débiter le plus tôt possible afin que ceux-ci puissent se réengager dans des interactions émotionnelles en utilisant les habiletés de communication qui sont en émergences (Greenspan & Wieder, 2011).

En plus des gains rapportés sur le développement du jeune enfant en tant que tel, des améliorations sont également observées au niveau de la famille en lien avec la participation à des interventions précoces, dont une augmentation de la qualité de vie de la famille et du sentiment d'efficacité des parents (Zwaigenbaum, 2010) ainsi qu'une réduction du stress familial (Warren et al., 2011; Wong & Kwan, 2010).

Il est néanmoins important de souligner que les données probantes sur les interventions précoces ne sont pas encore très robustes chez les tous-petits. De fait, considérant la relative nouveauté de ce champ de recherche, peu de recherches ont réellement été en mesure de démontrer un lien entre une intervention précoce offerte à des jeunes enfants avec un TSA et les gains observés (Rogers & Wallace, 2011).

1.1.3 Interventions précoces chez les enfants avec un TSA au Québec

Au Québec, deux principaux constats ressortent quant aux interventions précoces offertes aux enfants avec une suspicion ou un diagnostic de TSA, soit : 1) une prise en charge qui n'est pas suffisamment rapide et précoce, et 2) des interventions précoces qui reposent grandement sur une approche comportementale.

Dans un premier temps, les différents documents publiés par les organismes gouvernementaux ou paragouvernementaux québécois relèvent l'importance d'offrir des interventions précoces efficaces afin de favoriser le développement des jeunes enfants et ainsi diminuer les besoins en services spécialisés dans le futur (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014; Ministère de la santé et des services sociaux, 2003, 2012; St-Germain, 2009). Toutefois, des problèmes d'accessibilité sont rapportés. De fait, « l'implication des services est lente, partielle [et] inégale » (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). De plus, pour répondre aux besoins des jeunes enfants et de leur famille, une « intervention débutant avant ou le plus rapidement possible après le diagnostic est nécessaire pour le développement des capacités de la personne » (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). Malgré ces orientations ministérielles de 2003 précisant que les services devraient être offerts en fonction des besoins plutôt qu'en fonction de la présence ou l'absence d'un diagnostic, un diagnostic est généralement nécessaire afin d'avoir accès aux services spécialisés. En 2014, l'Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (INESSS) recommandait alors l'élaboration d'une offre de services pour les enfants d'âge préscolaire en attente d'un diagnostic de TSA (suspicion de TSA) (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014).

Dans un deuxième temps, la popularité des interventions comportementales précoces se manifeste également au Québec. De fait, l'offre de services pour les enfants avec un TSA au Québec découle majoritairement des approches comportementales. Plus spécifiquement, au Québec, les Centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement (CRDITED) ont la responsabilité d'offrir des services d'adaptation, de réadaptation et d'intégration sociale aux personnes présentant un TSA, en plus des services d'accompagnement et de soutien à l'entourage de ces personnes (Fédération québécoise des centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement, 2005). Actuellement, l'intervention comportementale intensive (ICI) est le principal service offert aux enfants de moins de 5 ans avec un TSA par les CRDITED dans les différentes régions, à l'exception de certains CRDITED qui ont plutôt retenu un modèle intégré d'intervention (St-Germain, 2009). Comme le souligne le rapport du protecteur du citoyen, « se rappelant que chaque enfant est unique, il est étonnant de privilégier des approches appliquées à tous de manière standardisée » (St-Germain, 2009). De plus, l'ICI qui est implanté dans la majorité des CRDITED coûte cher à l'état québécois, soit entre 15 000\$ et 55 000\$ annuellement par enfant (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Ainsi, l'INESSS s'est questionné sur les autres approches pouvant être utilisées pour répondre aux besoins spécifiques de chaque enfant et potentiellement à moindre coût. Dans cette optique, l'INESSS recommande que les interventions précoces intègrent à la fois des interventions comportementales favorisant le développement des habiletés cognitives, langagières et des comportements adaptatifs à des interventions sociopragmatiques développementales favorisant davantage le développement des habiletés préalables à la communication (ex. : attention conjointe et symbolisme) et la participation sociale (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014).

1.2 Implication des parents dans l'intervention précoce auprès des jeunes enfants avec un TSA

Tel que rapporté dans la section précédente, les évidences concernant les interventions précoces offertes aux jeunes enfants avec un TSA démontrent un potentiel important afin de favoriser le développement des jeunes enfants, d'optimiser le bien-être parental et de réduire le fardeau financier. Toutefois, malgré ces résultats prometteurs, il n'y a actuellement aucune intervention visant spécifiquement ces jeunes enfants avec un TSA qui répondent aux critères nécessaires pour considérer cette approche comme étant supportée par les données probantes (Rogers & Wallace, 2011). Considérant ces limites au niveau des études actuellement disponibles, il peut être tentant d'utiliser des méthodes d'intervention développées et validées pour les enfants d'âge préscolaire (3 à 5 ans) aux enfants de moins de trois ans. Par contre, il est important de souligner que les jeunes enfants sont qualitativement différents des enfants d'âge préscolaire (Kagan, 2008). Parmi les caractéristiques importantes des jeunes enfants de moins de trois ans, notons qu'ils sont dans une période de développement de l'attachement avec leurs parents (Belsky & Fearon, 2002; Sroufe et al., 1999) et évitent généralement les adultes non familiers, qu'ils passent la majorité de leur temps éveillé en interaction avec leurs parents, notamment pour offrir des soins de base ainsi que la communication repose principalement sur la sensibilité des parents aux signaux de communication de leur enfant (Rogers & Wallace, 2011). Ainsi, il est recommandé d'utiliser des techniques d'intervention qui sont adaptées aux besoins spécifiques des jeunes enfants (Rogers & Wallace, 2011). Zwaigenbaum et collaborateurs (2009) résument les différences à considérer comme suit :

Les caractéristiques sociales et d'apprentissage des nourrissons et bambins contrastent avec ceux des enfants d'âge préscolaire, qui présentent un plus haut niveau d'autonomie, qui sont plus largement influencés par leurs pairs, qui sont en mesure de faire des apprentissages moins contextualisés et qui ont plus de facilité avec la pensée symbolique et la communication. Les interventions qui prennent en compte les caractéristiques d'apprentissage des nourrissons et bambins doivent cibler les contextes et environnements naturels, l'initiative de l'enfant et l'exploration sensori-motrice ainsi que le développement de la communication non-verbale et le jeu réciproque avec les partenaires sociaux (traduction libre). (Zwaigenbaum et al., 2009)

Bien que trop peu de données soient actuellement disponibles pour être en mesure de définir les ingrédients-clés d'une intervention précoce efficace chez les jeunes enfants avec un TSA, il est possible d'émettre des hypothèses sur les ingrédients actifs les plus importants à

incorporer dans les interventions qui ciblent spécifiquement les jeunes enfants avec un TSA (Rogers & Wallace, 2011) en se basant notamment sur les connaissances acquises via l'étude d'autres groupes de jeunes enfants ayant ou non d'autres troubles développementaux (ex. : prématurité, trisomie 21, retard de développement). Parmi ces éléments-clés à considérer, sept caractéristiques des interventions précoces ont pu être ressorties :

- 1) Outiller les parents pour qu'ils puissent eux-mêmes mettre en place de façon quotidienne des stratégies répondant aux besoins de leur enfant;
- 2) Fournir des interventions hebdomadaires sur une période substantielle de temps pendant la période entre 0 et 3 ans;
- 3) Créer des activités individualisées qui répondent aux besoins développementaux de chaque enfant;
- 4) Débuter les interventions le plus tôt possible;
- 5) Augmenter la sensibilité du parent aux signaux de l'enfant (ex. : suivre les intérêts de l'enfant);
- 6) Adopter une approche globale qui vise le développement de plusieurs habiletés de l'enfant (ex. : habiletés langagières, motrices et autonomie) et;
- 7) Offrir un soutien aux parents (Rogers & Wallace, 2011)

1.2.1 Meilleures pratiques quant à l'implication des parents dans l'intervention précoce chez les enfants avec un TSA

La recherche sur le développement typique des jeunes enfants a démontré qu'ils développent leurs habiletés dans les routines de jeu, les jeux interactifs, les jeux symboliques avec les adultes proches (Prizant et al., 2005). Ainsi, les temps de jeu non structuré sont essentiels pour le développement des jeunes enfants alors que pour les enfants plus âgés, un apprentissage plus structuré devient de plus en plus important (Elkind, 2001). Spécifiquement, l'importance de l'interaction parent-enfant sur le développement langagier en bas âge est soulignée. En effet, il a été démontré qu'entre neuf et 15 mois, le développement du langage est particulièrement dépendant du langage parental adapté à l'attention et aux activités de l'enfant (Carpenter et al., 1998).

Ainsi, parmi les éléments-clés à considérer pour mettre en place une intervention précoce efficace auprès de jeunes enfants avec un TSA, l'implication des parents paraît des plus prioritaires. De fait, les études d'intervention précoce auprès de jeunes enfants publiées ont comme point commun de travailler avec le parent pour intégrer des stratégies favorisant le développement de l'attention conjointe, de l'imitation et du jeu dans les routines quotidiennes. Cette implication des parents a été démontrée comme étant un effet modérateur des interventions offertes aux enfants avec un TSA (Debodinance et al., 2017). Une augmentation de la généralisation et du maintien des acquis après l'intervention est également rapportée comme un bienfait de l'implication des parents, et ce, autant en ce qui a trait aux interventions structurées de type comportementales (Crockett et al., 2007; Koegel et al., 1982) que des interventions plus naturalistiques (Schreibman & Koegel, 1996, 2005). Bien que l'implication des parents puisse être favorisée, peu importe le paradigme sous-jacent à l'intervention utilisée, les recommandations afin de faciliter la mise en place de ces stratégies par les parents incluent l'intégration des stratégies favorisant le développement de leur enfant avec un TSA dans leur routine familiale (Schreibman & Ingersol, 2011). Également, plus les stratégies mises de l'avant sont perçues par les parents comme positives, plaisantes et faciles à incorporer dans leur routine, plus il est probable que les parents implantent ces stratégies auprès de leur enfant sur une base continue (Schreibman & Ingersol, 2011).

En se référant encore une fois aux études effectuées auprès des jeunes enfants sans trouble développemental, six stratégies concrètes ont été relevées comme favorisant le développement des jeunes enfants en interaction avec leur parent. Ces stratégies à favoriser mises en place par les parents sont :

- 1) Un affect parental contingent;
- 2) L'adulte qui suit les initiatives de l'enfant dans le jeu et le langage;
- 3) La sensibilité du parent aux signaux de l'enfant;
- 4) L'élaboration par le parent du jeu ou langage de l'enfant;
- 5) L'échafaudage permettant d'offrir des occasions d'apprentissage motivantes pour l'enfant en s'assurant que les défis ne sont ni trop difficiles ni trop faciles pour l'enfant et;

- 6) Utilisation d'un langage simplifié et exagéré (*motherese*) par le parent (Rogers & Wallace, 2011).

1.2.2 Implication des parents dans l'intervention précoce chez les enfants avec un TSA au Québec

Les documents gouvernementaux et paragouvernementaux du Québec en lien avec les services offerts aux enfants avec un TSA soulignent tous le rôle primordial qu'ont à jouer les parents dans ces interventions. De fait, le Ministère de la Santé et des Services Sociaux (MSSS) du Québec (2003) signale la responsabilité qu'ont les parents à jouer dans le développement de leur enfant. Considérant que les parents sont les principaux responsables du développement de leur enfant, le ministère relève le besoin de « bénéficier de soutien pour exercer leurs rôles et assumer leurs responsabilités » (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). Toutefois, le rapport du protecteur du citoyen souligne qu'actuellement, « le support à la famille est déficient » (St-Germain, 2009), laissant ainsi les familles à elles-mêmes avec leur enfant (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003, 2012).

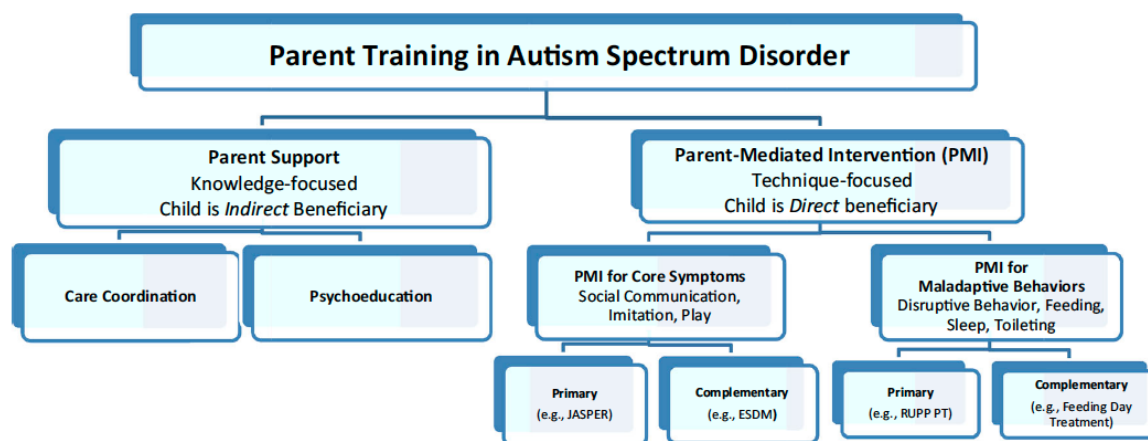
De plus, le rapport du protecteur du citoyen indique également, que lors de l'ICI, « la présence du parent n'est pas toujours sollicitée, même lorsque celui-ci manifeste le désir d'être associé à la dispensation de [l'intervention] » (St-Germain, 2009). Considérant les meilleures pratiques mentionnées précédemment quant à l'intervention précoce et à l'implication des parents dans ces interventions, il est donc primordial d'offrir des interventions précoces novatrices centrées à la fois sur les besoins de l'enfant et de la famille afin de favoriser le développement de l'enfant au quotidien ainsi que le bien-être parental.

1.3 Accompagnement des parents ayant des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA

Une multitude de modèles d'accompagnement parental ont été développés au cours des dernières années afin de répondre au besoin grandissant d'offrir une intervention de qualité développée spécifiquement pour répondre aux besoins des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA et de leur famille (Beaudoin et al., 2014). Toutefois, une grande variété d'interventions sont regroupées sous le grand chapeau des programmes

d'accompagnement parentaux (ou *parent coaching* en anglais) (Bearss et al., 2015a). De plus, la terminologie utilisée varie grandement créant une ambiguïté importante dans le domaine des programmes d'accompagnement parental pour des familles ayant un enfant avec un TSA. Ainsi, dans le cadre de cette thèse, la taxonomie utilisée sera celle proposée par Bearss et collaborateurs (2015). Tel qu'illustré dans la figure, l'ensemble des programmes d'accompagnement parental peuvent être classés sous deux principales catégories, soit 1) les programmes de soutien parental et 2) les programmes médiés par les parents (Bearss et al., 2015b) qui peuvent ensuite être subdivisée en sous-catégories. Premièrement, les programmes de soutien aux parents (ou *parent support* en anglais) « visent principalement à réduire le stress des parents et à les aider à s'adapter à la réalité d'être parent d'un enfant ayant un [TSA] » (Stipanivic et al., 2014). Ainsi, les parents sont les bénéficiaires de ce type d'intervention et leurs enfants peuvent bénéficier indirectement de telles interventions, mais le développement de l'enfant n'est pas un effet direct recherché par les programmes de soutien aux parents (Bearss et al., 2015a). Deuxièmement, les programmes médiés par les parents (ou *parent-mediated intervention*) « cherchent à améliorer l'interaction parent-enfant, de même qu'à enseigner aux parents à devenir des agents de changement dans l'intervention auprès de leur enfant » (Stipanivic et al., 2014). Contrairement aux programmes de soutien aux parents, dans les programmes médiés par les parents, en apprenant des techniques pour interagir avec leur enfant, les parents sont vus comme le vecteur permettant à leur enfant d'être le bénéficiaire direct de l'intervention (Bearss et al., 2015a). Ainsi, il est important de souligner qu'en fonction du type d'accompagnement parental utilisé, le thérapeute mettra une lunette différente pour intervenir auprès d'une même famille, favorisant soit l'apprentissage de connaissances par le parent afin d'améliorer son bien-être ou l'apprentissage de techniques à utiliser en interaction avec leur enfant afin de stimuler le développement de l'enfant. À l'instar des paradigmes comportementaux et développementaux, les programmes d'accompagnement parental peuvent également être situés sur un continuum en fonction de leur but principal. Ainsi certains programmes intègrent à des niveaux variables les deux pôles principaux soit le soutien émotionnel aux parents et l'apprentissage de stratégies à mettre en place par les parents.

Figure 1
Taxonomie des programmes d'accompagnement parental en TSA



Tiré de: Bearss, K., Burrell, T. L., Stewart, L., & Scahill, L. (2015). Erratum to: Parent Training in Autism Spectrum Disorder: What's in a Name? *Clinical Child and Family Psychology Review*, 18(2), 183–183.

Autorisation de reproduction obtenue de Springer.

Dans le cadre de cette thèse, les programmes d'accompagnement parentaux référeront aux programmes médiés par le parent. Plus précisément, la candidate au doctorat s'intéresse particulièrement aux programmes médiés par les parents qui sont utilisés comme modalité principale (*primary* dans la figure 1). À l'opposé des interventions complémentaires qui utilisent les programmes médiés par les parents pour bonifier la généralisation d'autres modalités d'intervention, l'utilisation d'un programme médié par les parents comme modalité principale se concentre sur le développement des habiletés des parents afin de stimuler leur enfant dans les interactions quotidiennes. Cela implique qu'au moins un parent (ex. : père, mère, parents adoptifs, grands-parents ou autres proches) a été formé par un professionnel à utiliser des techniques spécifiques au TSA pour promouvoir le développement de l'enfant. Les parents doivent avoir reçu une supervision formelle et du soutien de la part du professionnel. Cela peut impliquer des séances individuelles et/ou de groupe à la maison et/ou en clinique (Beaudoin et al., 2014). Les programmes médiés par les parents sont des méthodes d'intervention adaptées aux capacités d'apprentissage des enfants de moins de trois ans (Rogers & Wallace, 2011). En effet, les programmes médiés par les parents permettent d'augmenter le nombre d'heures d'exposition de l'enfant à une

stimulation appropriée, et ce, dans un contexte naturel et significatif offrant ainsi le potentiel de développer les habiletés de communication de l'enfant (Siller et al., 2013). Dans le même ordre d'idée, l'article de Siller et collaborateurs (2013) rapporte que les enfants avec un TSA ayant des habiletés langagières correspondantes à moins de 12 mois profitent plus d'un programme d'accompagnement parental de 12 semaines que ceux ayant des habiletés langagières plus développées. Il est donc primordial de mettre en place des programmes d'accompagnement parental rapidement pour maximiser le potentiel de cette modalité d'intervention (Siller et al., 2013).

De plus, les programmes médiés par les parents permettent d'offrir des interventions adaptées aux jeunes enfants avec un TSA. De fait, les caractéristiques de tels programmes répondent aux différentes recommandations formulées par le *National Research Council* (2001) concernant les interventions précoces à offrir aux jeunes enfants avec un TSA:

- 1) Les programmes d'accompagnement parental permettent de répondre rapidement aux besoins d'un enfant à risque ou diagnostiqué avec un TSA et de sa famille en optimisant les ressources humaines disponibles;
- 2) Ce type d'intervention permet d'offrir une stimulation intensive via les interactions quotidiennes entre l'enfant et son parent;
- 3) Les programmes d'accompagnement parental permettent également d'offrir des opportunités d'apprentissage répétées et individualisées via l'adaptation des stratégies dans le quotidien par les parents;
- 4) L'implication des parents et de la famille est fondamentale à ce type d'intervention;
- 5) Puisque l'intervention se fait au cours des interactions parent-enfant, un ratio de 1:1 est privilégié et;
- 6) Finalement, les parents sont encouragés à évaluer et ajuster les interactions avec leur enfant selon la réponse de celui-ci (*National Research Council (U.S.) & Committee on Educational Interventions for Children with Autism*, 2001).

La suite de cette section dressera le portrait des évidences scientifiques disponibles sur les programmes d'accompagnement offerts aux parents ayant un jeune enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA.

1.3.1 Recension des interventions de type accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA

Article 1

Avant-propos

Parent training interventions for toddlers with autism spectrum disorder

Auteurs de l'article: BEAUDOIN, Audrée Jeanne, SÉBIRE, Guillaume, & COUTURE, Mélanie

Statut de l'article: publié : Beaudoin, A.J., Sébire, G., & Couture, M. (2014). Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Autism Research and Treatment*, 2014, 1–15.

La contribution d'Audrée Jeanne Beaudoin pour le travail en lien avec cet article inclut: la recension des écrits, l'analyse des données, la présentation des données et la rédaction du manuscrit. Les coauteurs (Guillaume Sébire et Mélanie Couture) ont supervisé les différentes étapes, confronté les résultats et suggéré des améliorations au manuscrit.

Les deux coauteurs ont autorisé l'intégration de cet article dans la thèse d'Audrée Jeanne Beaudoin.

Résumé

Problématique : Maintenant que l'identification précoce des jeunes enfants avec un trouble du spectre de l'autisme (TSA) est possible, des efforts sont mis pour développer des interventions pour ces enfants de moins de trois ans. La majorité des études sur l'intervention précoce ont ciblé les interventions intensives et individuelles. Toutefois, les programmes d'accompagnement parentaux qui aident les parents à interagir et communiquer avec leurs jeunes enfants avec un TSA semblent être une alternative intéressante pour favoriser le développement des habiletés sociocommunicatives de leur enfant. **Objectif :** Cette recension des écrits vise à examiner de façon systématique (1) l'utilisation de programmes d'accompagnement parentaux pour des jeunes enfants de moins de 3 ans avec un TSA et (2) les effets sur le développement des enfants, du bien-être parental et des interactions parent-enfant. **Méthodes :** La recherche systématique a été complétée pour répertorier les études dans lesquelles au moins un parent a reçu une formation pour implanter des techniques spécifiques aux TSA avec leur enfant (0-36 mois) ayant un diagnostic ou une suspicion de TSA. **Résultats :** 15 études impliquant 484 enfants (âge moyen : 23,26 mois) ont été incluses dans cette recension. Seuls deux de ces études répondent aux critères d'évidences probantes. Les résultats démontrent que les parents étaient en mesure d'implanter les stratégies nouvellement apprises et ils étaient généralement très satisfaits des programmes d'accompagnement parentaux. Cependant, les résultats au niveau des habiletés communicatives et socioémotionnelles des enfants, les interactions parent-enfant et le bien-être parental étaient non concluants.

Abstract

Background: Now that early identification of toddlers with autism spectrum disorder (ASD) is possible, efforts are being made to develop interventions for children under three years of age. Most studies on early intervention have focused on intensive and individual interventions. However, parent training interventions that help parents interact and communicate with their toddlers with ASD might be a good alternative to promote the development of their child's socio-communicative skills. **Objective:** This review aims to systematically examine 1) the use of parent training interventions for children with ASD under three years of age, and 2) their effects on children's development, parents' well-being and parent-child interactions. **Methods:** Systematic searches were conducted to retrieve studies in which at least one parent was trained to implement ASD-specific techniques with their toddlers (0-36 months old) with a diagnosis of or suspected ASD. **Results:** Fifteen studies, involving 484 children (mean age: 23.26 months), were included in this review. Only two of them met criteria for conclusive evidence. Results show that parents were able to implement newly learned strategies and were generally very satisfied with parent training programs. However, findings pertaining to the children's communication and socio-emotional skills, parent-child interactions, and parental well-being were inconclusive.

Keywords: caregiver, coaching, early intervention, parent-mediated intervention, pervasive developmental disorder

1. Introduction

Autism Spectrum Disorder (ASD) is characterized by difficulties in social interaction and communication and by repetitive and stereotyped behaviors. With an estimated prevalence of up to 1/88 children in the U.S. (Baio, 2012), ASD is amongst the most frequent and severe developmental disorders. In the United States, ASD is associated with an estimated annual cost between 35 and 90 billion dollars (Ganz, 2007; Knapp, Romeo & Beechman, 2009).

In response to parents' concerns about their child's development that are present as early as 12 months of age (Zwaigenbaum et al., 2009), knowledge about and strategies to identify young toddlers with ASD are emerging (Zwaigenbaum, 2010). It is now possible to identify a child with ASD in the first two years of life based on socio-communicative behaviors (Zwaigenbaum et al., 2005).

Now that early identification of toddlers with ASD is possible, efforts must be made to develop interventions for these young children. In 1987 and 1993, Lovaas and colleagues first described the potential efficacy of early intervention for children with ASD by reporting less restrictive school placement and higher IQ in the group of children who received an intensive behavioral intervention compared to children in the control group (Lovaas, 1987; McEachin, Smith & Lovaas, 1993). More recently, early interventions have been associated with greater developmental gains and more reduction in autistic symptoms than interventions provided later on (Koegel, Bruinsma & Koegel, 2006; Rogers et al., 2012). Reilly and colleagues (2009) reported that typically developing children aged between 12 and 24 months go through an important period of development that results in more advanced social communication abilities. Interventions in this time frame are crucial to prevent an increase in the gap between children with ASD and their typically developing peers (Dawson, 2008). Also, the significant neuroplasticity in young children emphasizes the importance of very early intervention (Dawson et al., 2012). In fact, many clinical studies (Dawson et al., 2002; Dawson et al., 2005; Elsabbagh & Johnson, 2010; Grelotti, Gauthier & Schultz, 2002; Johnson et al., 2005; Kuhl, 2007; Kuhl, Coffey-Corina, Padden & Dawson, 2005) have described the interaction between infants' brains and their social environment and its impact on the development of infants' social and language brain circuitry (Dawson, 2008). Knowing

that each experience influences the brain structure and function of young children, interventions with toddlers with ASD have the potential to influence their developmental trajectories towards a more typical brain and behavioral development (Johnson, 2000; Dawson, 2008; Dawson et al., 2012).

Most research on early intervention focused on early intensive and individual interventions (20 to 40 hours per week). Despite their demonstrated efficacy for preschoolers with ASD (McEachin et al., 1993; Rogers & Vismara, 2008), intensive individual interventions are expensive and time-consuming and were originally developed for children between three and five years of age who have different learning needs than younger children. Infants from 12 to 36 months of age have specific developmental abilities and learning capacities, which require interventions that are tailored to them. Parent training interventions may be an effective alternative to support the learning capacities of toddlers with ASD (Rogers & Wallace, 2011). Moreover, parent training interventions are based on language development in very young children, which has been demonstrated to be dependent on the language used by their parents (Carpenter, Nagell, Tomasello, Butterworth & Moore, 1998). Thus, teaching parents how to interact and communicate with their toddlers with ASD through parent-training interventions might promote the development of their child's socio-communicative skills.

Few researchers have reviewed the effect of parent training interventions specifically for young children with ASD. At this time, most of the literature on early parent training interventions for children with ASD focuses on children under seven (Oono, Honey & McConachie, 2013; Kaminski, Valle, Filene & Boyle, 2008; McConachie & Diggle, 2007) or nine years of age (Meadan, Ostrosky, Zaghawan & Yu, 2009). No review focusing on parent training interventions for toddlers under 3 years of age has been published to date. Given the previously described potential benefits of very early parent-mediated interventions, there is a need to understand if this type of intervention is effective specifically for those young children. This review aimed to systematically examine the use of parent training interventions for children from 0 to 36 months of age at risk of or with a diagnosis

of ASD and their effects on children and parents. In particular, the following questions were addressed:

- (1) What are the parent training programs used for children from 0 to 36 months of age with a diagnosis of or suspected ASD?
- (2) What are the effects of parent training programs on (a) child development, (b) parental well-being, and (c) parent-child interactions?

2. Method

2.1 Search procedures. Systematic searches were conducted in May and June 2013 in four electronic databases: CINAHL, ERIC, Pubmed/Medline, PsychInfo. The search was limited to articles published in English or French in peer-reviewed journals. Searches were conducted using combinations of the three keywords (and synonyms): “autism spectrum disorder” (e.g. autism, pervasive developmental disorder), “toddlers” (e.g. infants, preschoolers, early intervention) and “parent training” (e.g. parent coaching, parent-mediated intervention, caregiver-mediated intervention). We also searched in the Cochrane Database of Systematic Reviews, looked in Google Scholar, and examined bibliographies of systematic and non-systematic reviews found in any of the six databases. Reference lists of articles that met inclusion criteria were also examined to identify articles that had not been found through electronic searches. We found eleven additional studies using these alternative procedures.

2.2 Inclusion and exclusion criteria. To be included in the review, studies had to meet four inclusion criteria, as follows:

- (1) All children had to be at risk of or have had a diagnosis of ASD (including pervasive developmental disorder, autistic disorder, Asperger syndrome and pervasive developmental disorder not otherwise specified)
- (2) More than 50% of the children had to be aged 36 months or less at the time of recruitment (if this information was not available, the mean age of participants at recruitment had to be under 36 months) and all children in the study had to be 5 years old or less.
- (3) At least one parent (referring to fathers, mothers, foster parents, grandparents or other relatives) had to be trained by an education or health professional to use ASD-specific

techniques to promote the child's development. Parents must have received ongoing supervision and support from the professional. The training could involve individual and/or group coaching at home and/or in a clinic environment. Studies that assessed different types of interventions (e.g. individual intensive interventions) were excluded from the review if they did not report effects of parent training interventions separately from other types of interventions.

- (4) Effects of the intervention had to be reported by quantitative data. Quantitative data from mixed methods studies could be included if they reported intervention effects.

2.3 Data extraction and coding. Studies included in this review were summarized in terms of: (a) participant characteristics, (b) dependent variables and measurement tools, (c) intervention characteristics (including program type, strategies, setting, frequency, duration and goals), (d) intervention outcomes (directly after intervention and at follow-up, when appropriate) on children, parents and parent-child interactions, and (e) certainty of the evidence.

Parent training outcomes (effects on children, parents and parent-child interactions) were summarized as reported in the original paper (i.e. pre-post change, statistical significance, or effect size). Considering that a systematic review is a scientific tool that can be used by healthcare providers, consumers, researchers, and policy makers (Higgins & Green, 2006) to “evaluate existing or new technologies and practices efficiently and consider the total available data” (Green, 2005), outcomes in each article were then classified in four categories (positive, mixed, no, and negative effects) according to the magnitude of changes due to parent training interventions. Previous systematic reviews used the three first categories (Palmen, Didden & Lang, 2012; Lang et al., 2012; Machalicek et al., 2008). Results were classified as “positive” if visual analysis of the results of single case studies showed an increase in abilities for all participants between baseline and intervention or if there was a statistically significant between-group difference in experimental designs. “Mixed” results were defined as improvement in some but not all participants in single-case designs or a trend short of statistical significance in between-group designs. If no participants in single-case studies benefited from the intervention or if there was no statistically significant

improvement in between-group designs, results were classified as “no effects”. Finally, the research team added a fourth category to the original 3-level classification, namely “negative” effects. Results were classified as “negative” if visual analysis of the results of single-case studies demonstrated deterioration in abilities in most participants between baseline and intervention or if there was a statistically significant between-group difference in favor of the control group in experimental designs. However, none of the studies reviewed reported negative effects of the intervention.

The studies’ methodological rigor could be assessed based on several classification systems. The research team used a 3-level classification system (suggestive, preponderant, and conclusive evidence) used in previous reviews (Palmen et al., 2012; Lang et al., 2012) to summarize the level of evidence for each study reviewed. “Suggestive” evidence was the lowest level of evidence. Studies classified at this level did not use a true experimental design. They might have used pre- or quasi-experimental designs including an AB-design or pre-post intervention design without a control group. The next level of certainty was “preponderant” evidence, which means that there was a strong, but not irrefutable, conclusion. Studies included in this second level of certainty needed to (a) use a true experimental design, (b) have adequate inter-observer agreement (i.e. at least 80% fidelity) for at least 20% of evaluation sessions, (c) have an operationally-defined dependent variable, and (d) provide sufficient details about the intervention for replication of procedures. The strongest form of evidence was “conclusive”. To provide conclusive evidence, studies had to comply with all the attributes of the preponderant level plus contain (a) design features that provided at least some control for alternative explanations for intervention outcomes, and (b) a measure of treatment fidelity to assess the degree of implementation of treatment-specific strategies by parents and/or therapists throughout the program.

3. Results

3.1 Description of studies. Six hundred and sixty-nine (669) articles were retrieved from the electronic searches. After removing duplicates and elimination based on the title, 174 abstracts remained. Based on these 174 abstracts, we eliminated 86 articles. The remaining 91 full-text articles were further assessed for eligibility. At this point, 75 articles were excluded because they described intervention models rather than assessing their effects (n=7), children had developmental disabilities other than ASD (n=4), children were older than 36 months (n=60), studies reported exclusively qualitative data (n=1), studies did not report results specifically for the parent training intervention (n=1), or studies focused exclusively on a specific component of parent training rather than the whole intervention (n=2). Of the remaining 16 articles, Vismara, Colombi and Rogers' paper (2009) concerned the single participant included in a previous case study (Vismara & Rogers, 2008). Therefore, we excluded the single case study (Vismara & Rogers, 2008) to avoid redundancy. The research team also contacted Gerald Mahoney, who ascertained that most children in Mahoney & Perales' studies (2003; 2005) were different. Despite a little overlap, these two studies were included in the review. A total of 15 studies were analyzed for this review. Table 1 describes the main features of each of these 15 articles.

Table 1
Description of studies

| Studies | Participant characteristics | | Diagnosis | Methods | Control condition (if applicable) |
|--------------------------------|-------------------------------------|-----------------------------------|--|---|--|
| | <i>n</i> total (intervention group) | Age (months) mean (min–max) | | | |
| Drew et al., 2002 [38] | 24 (intervention = 12) | 22.5 | Childhood autism (ICD-10) | Randomized controlled trial | Local services: mixture of services |
| Mahoney and Perales, 2003 [36] | 20 | 32.1 | Autistic disorder or PDD | Preexperimental design: pre/postintervention | n/a |
| Mahoney and Perales, 2005 [37] | 20 | 32.6 | ASD | Preexperimental design: pre/postintervention | n/a |
| Wetherby and Woods, 2006 [39] | 17 | 18.2 (12–24) | Provisional clinical diagnosis of ASD | Quasi-experimental design: pre/postintervention | Contrast group: no treatment |
| Rocha et al., 2007 [40] | 3 | 31.7 (26–42) | Autistic disorder | Single subject multiple baseline across pairs of participants | n/a |
| Schertz and Odom, 2007 [41] | 3 | 26.3 (22–33) | Strong early markers of ASD | Mixed methods: multiple-baseline design | n/a |
| Vismara et al., 2009 [34] | 8 | 27.5 (10–36) | Autistic disorder (DSM-IV) | Case study: nonconcurrent multiple-baseline design | n/a |
| Gulsrud et al., 2010 [42] | 34 | 30.6 (21–36) | ASD | Quasi-experimental design | n/a |
| Kasari et al., 2010 [43] | 38 (intervention = 19) | 30.8 (21–36) | Autistic disorder (DSM-IV) | Randomized waitlist control design | Waitlist: mixture of services Care-as-usual: daycare with speech and language therapy, motor therapy, music therapy, play therapy, and support for parents |
| Oosterling et al., 2010 [44] | 67 (intervention = 36) | 32.9 | Autistic disorder or PDD | Randomized controlled trial | Waitlist: no intervention |
| Wong and Kwan, 2010 [45] | 17 (intervention = 9) | 26.5 (17–30) | ASD (DMS-IV) | Randomized waitlist control design | Control group: business as usual |
| Carter et al., 2011 [46] | 55 (intervention = 29) | 20.3 (15–25) | At risk of ASD | Randomized controlled trial | Community group; mixture of services |
| Rogers et al., 2012 [10] | 98 (intervention = 49) | 21.0 (14–24) | At risk of ASD | Randomized controlled trial | Comparison groups: no intervention |
| Green et al., 2013 [47] | 77 (intervention = 7) | 8.4 (8–10) | Infant siblings of autistic probands | Case series with comparison groups; high risk (<i>n</i> = 37) and low risk (<i>n</i> = 33) | |
| Steiner et al., 2013 [48] | 3 | 12 | Infant siblings of probands with ASD | Case series | n/a |

Table 1 (continued)
Description of studies

| Studies | Type | Setting | Intervention characteristics Recommended frequency and duration | Hours of intervention | Children's targeted behaviors/abilities |
|--------------------------------|--|----------------|---|---------------------------|---|
| Drew et al., 2002 [38] | Social-pragmatic joint attention-focused parent training | Home | 3 h/6 weeks over 1 year | 27 hours | Declarative acts combined with eye contact, nonverbal requests, object-function play, imitation of actions, and turn-taking. |
| Mahoney and Perales, 2003 [36] | Relationship-focused parent training | Clinic or home | 1 h/week over 1 year | 31 hours | Cognition, communication, socioemotional functioning, and motivation |
| Mahoney and Perales, 2005 [37] | Relationship-focused parent training (responsive teaching) | Clinic or home | 1 h/week over 1 year | 32.6 hours | Cognition, communication, socioemotional functioning, and motivation |
| Wetherby and Woods, 2006 [39] | Parent-child playgroup | Clinic | 2x/week for 12 months | Not specified | Individualized social communication goals |
| | Naturalistic comprehensive parent training | Home | 1x/week over 9 weeks | Not specified | |
| Rocha et al., 2007 [40] | Joint attention-focused parent-implemented intervention using natural behavior analytic strategies | Clinic | 3x/week for 75 minutes over 6 weeks | At least 17 hours | Response of joint attention |
| Schertz and Odom, 2007 [41] | Joint attention-focused parent training | Home | 1x/week for 9 to 26 weeks | Mean = 14 hours | Focus on faces, turn-taking, responding to joint attention, and initiating joint attention |
| Vismara et al., 2009 [34] | Comprehensive parent training incorporating behavioral and developmental strategies | Clinic | 1 h/week over 12 weeks | 12 hours | Attention and motivation, sensory social routines, dyadic engagement, nonverbal communication, imitation, joint attention, speech, and behavior |
| Gulrud et al., 2010 [42] | Joint attention-focused caregiver training incorporating behavioral and developmental strategies | Clinic | 3x/week for 30 minutes over 8 weeks | 12 hours | Initiation and response of joint attention |
| Kasari et al., 2010 [43] | Joint attention-focused caregiver training incorporating behavioral and developmental strategies | Clinic | 3x/week for 30 minutes over 8 weeks | 12 hours | Initiation and response of joint attention |
| Oosterling et al., 2010 [44] | Social-pragmatic joint attention-focused parent training | Clinic Home | 2 plenary sessions 2 h/week over 4 weeks + 3 h/6 weeks over 11 months | Not specified 32 hours | Declarative acts combined with eye contact, nonverbal requests, object-function play, imitation of actions, and turn-taking |
| Wong and Kwan, 2010 [45] | Communication-focused intervention with the child | Clinic | 5x/week for 30 minutes for 2 weeks (10 sessions) | 5 hours | Eye contact, gesture, and vocalization/words |
| | Communication-focused parent training | | | | |

Table 1 (continued)
Description of studies

| Studies | Type | Setting | Intervention characteristics | | Children's targeted behaviors/abilities |
|---------------------------|---|---------|--|-----------------------|---|
| | | | Recommended frequency and duration | Hours of intervention | |
| Carter et al., 2011 [46] | Communication-focused parent group training | Clinic | 1x/week over 8 weeks | Not specified | Two-way interaction, mature and conventional ways of communication Communication for social purposes, understanding of language Attention and motivation, sensory social routines, dyadic engagement, nonverbal communication, imitation, joint attention, speech, and behavior |
| | Communication-focused parent training | Home | 3x | Not specified | |
| Rogers et al., 2012 [10] | Comprehensive parent training incorporating behavioral and developmental strategies | Clinic | 1x/week for 1 hour over 12 weeks | 12 hours | Social engagement and reciprocity |
| Green et al., 2013 [47] | Developmental video-aided autism-specific parent training | Home | 12 sessions of 1.5 hours over 5 months | 18 hours | |
| Steiner et al., 2013 [48] | Behavioral parent training | Clinic | 8 sessions of 1 hour over 3 months | 8 hours | Communication |
| | | Home | 2 sessions of 1 hour over 3 months | 2 hours | |

3.1.1 Participants. A total of 484 children with a mean age of 23.26 months were included in this review. Those children were diagnosed with ASD (n=248; Drew et al., 2002; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Wetherby & Woods, 2006; Rocha, Schreibman & Stahmer, 2007; Vismara et al., 2009; Gulsrud, Jahromi & Kasari, 2010; Kasari, Gulsrud, Wong, Kwon & Locke, 2010; Oosterling et al., 2010; Wong & Kwan, 2010) or identified as being at risk of ASD based on either the presence of early markers (n=156; Schertz & Odom, 2007; Carter et al., 2011; Rogers et al., 2012) or because they were infant siblings of probands with ASD (n=80; Green et al., 2013; Steiner et al., 2013).

Two-hundred-and-seventy-seven (57%) parent-child dyads received a parent training intervention whereas the remaining 207 children were controls. Gender was reported for 253 of the 277 toddlers involved (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Wetherby & Woods, 2006; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Oosterling et al., 2010; Wong & Kwan, 2010; Rogers et al., 2012; Green et al., 2013); 192 children were male (76%) and 61 were female (24%).

Primary caregiver gender was detailed in seven of the 15 studies reviewed (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Gulsrud et al., 2010; Wong & Kwan, 2010; Green et al., 2013). Most primary caregivers who participated in parent training programs in these studies were female (n=95; 99%), compared to only one male primary caregiver (1%). Two papers reported training of relatives other than mothers or fathers. Kasari and colleagues (2010) included a grandparent as the primary caregiver for two children. Also, Vismara, Colombi and Rogers (2009) included a grandmother as an observer during parent training sessions rather than as an active participant, who was the child's mother in this case. The mean age of parents (or other caregivers) receiving training ranged from 27.3 (Schertz & Odom, 2007) to 36 years (Rocha et al., 2007).

3.1.2 Intervention types. Parent training interventions for children with a diagnosis of or suspected ASD may be classified based on their theoretical paradigms or their targeted goals.

Based on their theoretical paradigms, interventions may be positioned on a continuum from pure behavioral interventions to socio-pragmatic interventions (Prizant & Wetherby, 1998). Interventions based on a behavioral paradigm stem from Lovaas (1987) and colleagues' work and are characterized by a high level of structure in which a therapist prompts the child's behavior. When the child responds correctly, the therapist reinforces the behavior. At the other end of the continuum, socio-pragmatic interventions are represented by the DIR® Floortime model (Greenspan & Wieder, 2006). Socio-pragmatic interventions are characterized by following the child's lead through spontaneous play activities and using those activities to enhance the child's learning. Eight of the 15 articles reviewed used interventions mainly based on the socio-pragmatic paradigm (Drew et al., 2002; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Wetherby & Woods, 2006; Schertz & Odom, 2007; Oosterling et al., 2010; Wong & Kwan, 2010; Green et al., 2013) and two articles reported more behaviorally-based interventions (Rocha et al., 2007; Steiner et al., 2013). The remaining five articles incorporated strategies from both paradigms (Vismara et al., 2009; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Carter et al., 2011; Rogers et al., 2012). For example, the Early Start Denver Model parent training program used by Vismara and colleagues (2009) and Rogers and colleagues (2012) integrates behavioral techniques, such as repetition and the ABC structure of activities with socio-pragmatic strategies, including intervention through activities chosen by the child in natural settings (Rogers & Dawson, 2010).

Interventions can also be classified as either ability-focused or comprehensive. Focused interventions are individual instructional strategies used to develop specific abilities in children with ASD (Odom, Collet-Klingenberg, Rogers & Hatton, 2010). Ten papers used focused interventions (Drew et al., 2002; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Oosterling et al., 2010; Wong & Kwan, 2010; Carter et al., 2011; Green et al., 2013; Steiner et al., 2013). Abilities targeted in these interventions included communication (Wong & Kwan, 2010; Carter et al., 2011; Steiner et al., 2013), joint attention (Drew et al., 2002; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Oosterling et al., 2010), and parent-child relationship (Green et al., 2013). On the other hand, comprehensive treatment models were studied in five articles (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Wetherby & Woods, 2006; Vismara et al., 2009;

Rogers et al., 2012). These interventions use sets of practices with multiple components for a broader developmental impact on core deficits in ASD (Odom, Boyd, Hall & Hume, 2010). They may include development of communication, social interaction, cognition, play and autonomy. Notwithstanding the type of intervention, development of communication was a main goal of all 15 papers. In fact, difficulties with communication are a core deficit in ASD and frequently the main concern of parents.

Eight of the 15 articles used a comparison group, which allows a better estimate of the effect of the intervention on children and parent outcomes. Interventions received by the 233 participants in comparison groups varied widely. Ninety-six of these participants (41%) from three studies (Wetherby & Woods, 2006; Wong & Kwan, 2010; Green et al., 2010) did not receive any treatment while, in the other five studies, 137 participants (59%) received treatment “as usual” (Oosterling et al., 2010; Carter et al., 2011) or a mixture of interventions (Drew et al., 2002; Kasari et al., 2010; Rogers et al., 2012).

3.1.3 Setting. All 15 articles reported individual parent sessions, six of which took place in the family home (Drew et al., 2002; Wetherby & Woods, 2006; Schertz & Odom, 2007; Oosterling et al., 2010; Carter et al., 2011; Green et al., 2013), at a clinic in six studies (Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Wong & Kwan, 2010; Rogers et al., 2012), and either at home or in a clinic in three studies (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Steiner et al., 2013). Mahoney and Perales (2003; 2005) gave families the choice of setting (clinic- or home-based) for the parent training program. Steiner and colleagues (2013) varied the setting of the parent training: 8 sessions took place in a clinic and 3 at home. In this paper, clinic-based sessions were focused on teaching new strategies while home-based sessions focused on generalization of the newly acquired techniques at home. Also, two studies used some parent group classes that took place in a clinical setting (Wetherby & Woods, 2006; Carter et al., 2011).

3.1.4 Intensity. Total time of interventions received varied between five and 32 hours (mean = 18 hours). Most studies involved parent training sessions for a total time between 10 and 20 hours (Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Gulsrud et al.,

2012; Kasari et al., 2010; Rogers et al., 2012; Green et al., 2013; Steiner et al., 2013) over a period of two to six months (Wetherby & Woods, 2006; Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Carter et al., 2011; Rogers et al., 2012; Green et al., 2013; Steiner et al., 2013). Intervention programs that offered more than 20 hours of intervention lasted at least 12 months (Drew et al., 2002; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Oosterling et al., 2010). Only one paper assessed the effects of a shorter, but intensive, parent training program. Wong and Kwan (2010) studied an intensive 2-week parent training intervention during which parents attended ten 30-minute sessions.

3.1.5 Teaching strategies. Studies incorporated a range of strategies to teach parents new skills. Some articles reported the use of only one (Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Green et al., 2013) or two (Carter et al., 2011) teaching strategies. However, most studies used many different teaching strategies to enhance parents' learning; the mean number of strategies described in the articles reviewed was 4.4 (from 1 to 9). Wetherby and Woods' (2006) article reported the most varied used of teaching strategies. Unlike every other study, therapists in this study did not use all of the teaching strategies in the intervention program. They rather personalized the teaching strategies used based on therapists' and parents' preferred teaching and learning styles respectively.

The most commonly used teaching strategy was didactic teaching by the therapist. Only two studies (Wetherby & Woods, 2006; Green et al., 2013) did not report therapists verbally explaining new techniques to caregivers. Rather than using traditional lectures by the trainer, Wetherby and Woods (2006) used video clips to introduce new skills to parents. Other popular teaching strategies included demonstration or modeling of intervention techniques by the trainer (Drew et al., 2002; Wetherby & Woods, 2006; Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009; Oosterling et al., 2010; Rogers et al., 2012; Steiner et al., 2013), guided practices of new skills by parents with support and/or feedback from the therapist (Drew et al., 2002; Wetherby & Woods, 2006; Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009; Oosterling et al., 2010; Rogers et al., 2012; Steiner et al., 2013), giving written materials to parents (Wetherby & Woods, 2006; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Oosterling et al., 2010; Rogers et al., 2012), discussion between the trainer and parents on activities to

develop targeted child skills (Drew et al., 2002; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Wetherby & Woods, 2006; Shertz & Odom, 2007; Oosterling et al., 2010), review of previous techniques (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Shertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Rogers et al., 2012), and parents having to implement new skills in daily living routines (Drew et al., 2002; Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Oosterling et al., 2010; Wong & Kwan, 2010).

Other teaching strategies used in some studies included discussions about short-term objectives (Drew et al., 2002; Wetherby & Woods, 2006; Oosterling et al., 2010), about generalization of newly acquired skills in family daily routines (Wetherby & Woods, 2006; Vismara et al., 2006; Oosterling et al., 2010; Rogers et al., 2012), and about family concerns that were not included in the parent training program (Wetherby & Woods, 2006; Schertz & Odom, 2007). To ensure good comprehension by parents, they were encouraged to ask questions (Wetherby & Woods, 2006; Rocha et al., 2007), to provide good and poor examples of implementing a strategy (Rocha et al., 2007), and to demonstrate their use of the strategy (Wong & Kwan, 2010). Also, video-feedback (Carter et al., 2011; Green et al., 2013) and fading of prompts (Rocha et al., 2007) were used in recent studies to help parent implement strategies with their children.

3.2 Effects of interventions. Only four of the 15 studies included a follow-up assessment in their study design (Rocha et al., 2007; Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Carter et al., 2011). Timing of follow-up assessments varied from one (Vismara et al., 2009) to four months (Carter et al., 2011) after the end of the intervention. Table 2 summarizes the effects of interventions for both post-intervention and follow-up assessments.

Table 2
Effects of interventions

| Studies | Time of followup after intervention assessment | Certainty of evidence | Communication | | Child outcomes Socioemotional functioning | Other |
|--------------------------------|--|-----------------------|--|---|--|---|
| | | | Expressive | Receptive | | |
| Drew et al., 2002 [38] | n/a | Preponderant | Mixed | Mixed | — | <i>Symptom severity: none</i> <i>Nonverbal IQ: none</i> |
| Mahoney and Perales, 2003 [36] | n/a | Suggestive | — | — | Mixed | — |
| Mahoney and Perales, 2005 [37] | n/a | Suggestive | — | — | Mixed | <i>Global development: positive</i> |
| Wetherby and Woods, 2006 [39] | n/a | Suggestive | Mixed | Positive | — | — |
| Rocha et al., 2007 [40] | 3 months | Preponderant | — | PI: positive FU: mixed | — | — |
| Schertz and Odom, 2007 [41] | 5 weeks | Suggestive | — | — | — | — |
| Vismara et al., 2009 [34] | Weekly over 4 weeks | Suggestive | PI: positive FU: positive | — | — | — |
| Gulsrud et al., 2010 [42] | n/a | Suggestive | — | — | Mixed | — |
| Kasari et al., 2010 [43] | n/a | Conclusive | — | — | — | <i>Play: mixed</i> |
| Oosterling et al., 2010 [44] | n/a | Preponderant | None | None | — | — |
| Wong and Kwan, 2010 [45] | n/a | Preponderant | Mixed | | Positive | <i>Play: mixed</i> |
| Carter et al., 2011 [46] | 4 months | Conclusive | PI: none FU: none | — | — | — |
| Rogers et al., 2012 [10] | n/a | Preponderant | None | None | — | <i>Adaptive behaviors: none</i> <i>Global development: none</i> <i>Symptom severity: none</i> |
| Green et al., 2013 [47] | n/a | Suggestive | Mixed | None | — | <i>Symptom severity: none</i> <i>Global development: mixed</i> <i>Visual attention: mixed</i> |
| Steiner et al., 2013 [48] | n/a | Suggestive | Positive | — | — | — |

Table 2 (continued)
Effects of interventions

| Studies | Fidelity of implementation | Parent outcomes | | | Parent-child interactions | |
|--------------------------------|--|-----------------|-----------------|---|---------------------------------|--------------------------------|
| | | Stress | Satisfaction | Other | Parent's engagement with child | Child's engagement with parent |
| Drew et al., 2002 [38] | — | None | — | — | — | — |
| Mahoney and Perales, 2003 [36] | — | — | — | — | Mixed | Positive |
| Mahoney and Perales, 2005 [37] | — | — | — | — | Mixed | Positive |
| Wetherby and Woods, 2006 [39] | — | — | — | — | — | — |
| Rocha et al., 2007 [40] | Clinic PI: positive Home PI: mixed | — | Positive | — | PI: positive FU: none | PI: mixed FU: mixed |
| Schertz and Odom, 2007 [41] | — | — | Positive | — | — | PI: mixed FU: mixed |
| Vismara et al., 2009 [34] | PI: positive FU: positive | — | — | — | — | PI: mixed FU: mixed |
| Gulrud et al., 2010 [42] | — | — | — | — | Positive | — |
| Kasari et al., 2010 [43] | Positive | — | — | — | — | Mixed |
| Oosterling et al., 2010 [44] | — | — | — | — | None | None |
| Wong and Kwan, 2010 [45] | — | Mixed | — | — | — | — |
| Carter et al., 2011 [46] | — | — | Positive | — | PI: mixed FU: none | PI: none FU: none |
| Rogers et al., 2012 [10] | Mixed | — | — | <i>Therapeutic relationship:</i> positive | — | — |
| Green et al., 2013 [47] | — | — | — | <i>Social validity:</i> positive | Mixed | — |
| Steiner et al., 2013 [48] | Positive | — | Positive | — | — | — |

PI: postintervention.

FU: followup.

3.2.1 Child outcomes. Thirteen of the 15 articles reported the effects of a parent training program on children's abilities directly at the end of the intervention (post-intervention), and three of these 13 papers reported effects on children's development at follow-up. However, the results of the 13 studies diverge, partly because of the heterogeneity of the intervention programs proposed and the diverse research methodology used.

As reported in Table 2, some gains in general communication outcomes were reported by Wong and Kwan (2010). More precisely, studies reported a significant increase in the number of words understood (Wetherby & Woods, 2006) and expressed (Vismara et al., 2009), frequency of communication (Steiner et al., 2010), imitative behaviors (Vismara et al., 2009), joint attention (Wetherby & Woods, 2006), and eye contact (Wetherby & Woods, 2006; Schertz & Odom, 2007) after a parent training intervention.

However, these gains were not consistently reported across the studies reviewed. In fact, five of the six randomized controlled trials reported few (Drew et al., 2002; Kasari et al., 2010) or no (Oosterling et al., 2010; Carter et al., 2011; Rogers et al., 2012) gains in socio-communicative outcomes for children with ASD after a parent training intervention. Although Wong and Kwan's (2010) reported similar mixed results concerning expressive and receptive communication skills, their study was the only randomized controlled trial that reported positive effects on children's social communication. In fact, parents reported statistically better social relationships with people ($p = 0.007$) for their child after the Wong and Kwan's 2-week parent training program that targeted eye contact, gestures and vocalizations. Also, both studies that met methodological criteria for conclusive evidence reported divergent results. On the one hand, Carter and colleagues (2011) reported no main effect of the intervention on changes in child communication outcomes after the intervention ($ES < 0.001$). On the other hand, Kasari and colleagues (2010) reported significant improvements in engagement states (object engagement $ES: 1.09$; joint engagement $ES: 0.87$), frequency of joint attention responses ($ES: 0.74$), and quality of functional play ($ES: 0.88$) whereas they did not observe significant improvements in frequency of attention initiations and quality of symbolic play following the 8-week parent training intervention.

Effects of interventions at follow-up assessments were similar to post-intervention results. Among the three studies that examined children's communication trajectories after the end of the intervention program, one reported no intervention effects (Carter et al., 2011), one reported mixed results (Rocha et al., 2007), and one reported positive results (Vismara et al., 2009). Again, if we examine the results of these studies in light of their certainty of evidence, the only randomized controlled trial available (Carter et al., 2011) did not report any significant effect of the intervention on children's communication four months after the end of the Hanen *More Than Words*® parent education program (ES: [-0.19; 0.16]), as opposed to both case studies (Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009) that reported more positive long-term outcomes.

No major difference was found between parent-reported results and direct observation measures. In fact, proportions of categorical outcomes (no, mixed, and positive effects) are similar between results from caregiver-reported assessments (no effect: 27%; mixed effects: 36%, positive effect: 36%) and direct observation measures (no effect: 27%; mixed effects: 20%; positive effect: 53%). Furthermore, two studies used both types of measures to assess intervention effects on the same variable and they both reported similar results from parent-reported and professional observation data. More precisely, Oosterling and colleagues (2010) did not report any significant improvement in expressive communication after their 1-year parent training program or in the parent-reported MacArthur Communication Developmental Inventory (Fenson et al., 1993), nor in the direct observation rating on item A1 (level of non-echoed language) of the Autism Diagnosis Observation Schedule (ADOS; Lord, Rutter, DiLavore, & Risi, 2001). Also, Wong and Kwan (2010) reported significant gains after their 2-week intensive parent training intervention in parent ratings of their child's communication ($p = 0.010$) on the Language subscale of the Ritvo-Freeman Real Life Rating Scale (Freeman, Ritvo, Yokota & Ritvo, 1986) and in blind assessors' ratings on the Communication and Language subscale of the ADOS ($p = 0.007$).

3.2.2 Parent outcomes. Considering that parents are the main actors in parent-mediated interventions, it is very important to evaluate the effects of parent training interventions on both parent and child behavior (Koegel, Bimbela & Schreibman, 1996; Ingersoll & Wainer, 2013). However, in the articles reviewed, parent outcomes received much less attention than their child's socio-communicative development (see Table 2).

In general, parents of toddlers at risk of ASD who participated in a parent training program reported a high level of satisfaction with the intervention (Schertz & Odom, 2007; Steiner et al., 2013; Carter et al., 2011). These parents also tended to have a high level of fidelity of strategy implementation (Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009; Kasari et al., 2010; Rogers et al., 2012; Steiner et al., 2013) that was maintained four weeks after the end of the intervention (Vismara et al., 2009). However, Rocha and collaborators (2007) reported higher fidelity of strategy implementation when interventions took place in clinics (mean = 92.7%), compared to the family home, which represented a generalization context (86.8%).

The scientific literature strongly supports the notion that parents of children with ASD often experience higher stress than parents with typically developing children or children with other disabilities (Dabrowska & Pisula, 2010; Davis & Carter, 2008; Dumas, Wolf, Fisman & Culligan, 1991; Mori, Ujiie, Smith & Howlin, 2009; Estes et al., 2009). Therefore, parent training may be an important strategy for reducing parental stress (Estes, Hus & Elder, 2011). However, few ($n = 2$) studies examined the effect of parent training on this very important parental variable. In addition, the results available differ from one study to the next. Wong and Kwan (2010) reported a significant decrease in parental stress as measured by the total score on the Parental Stress Index (PSI)-Short Form ($p = 0.004$) after a 2-week intervention comprising a child-therapist therapy targeting eye contact, gestures and vocalizations and a program teaching parents how to use corresponding techniques at home. Interestingly, no significant decrease was observed in this study when analyzing parental stress separately for the three subscales of the PSI-Short Form (p 's from 0.025 to 0.069). In the other study, the social-pragmatic joint attention-focused parent training program evaluated by Drew and colleagues (2002), which lasted longer but was less intensive (i.e. once every six weeks) than

Wong and Kwan's program, did not significantly decrease parental stress in comparison to the local services control group ($p > 0.05$).

The effects of parent training programs on other parental variables have received very little attention. Based on data available at this time, parent training interventions seem to be well accepted by parents (Green et al., 2013) and may facilitate the establishment of a good therapeutic relationship (Rogers et al., 2012). Parental variables such as parental competence, self-efficacy and empowerment were not explored in the studies included in this review.

3.2.3 Parent-child interactions outcomes. As reported in Table 2, 10 of the 15 studies reviewed assessed effects of interventions on parent-child interactions. However, no study reported parent-child interactions with a global measure for the parent-child dyad. Instead, analyses of parent child-interactions were based on the engagement of each partner in the interaction separately. Thus, authors of the ten articles assessing parent-child interactions used either one (Schertz & Odom, 2007; Vismara et al., 2009; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Green et al., 2013) or both (Mahoney & Perales, 2003; 2005; Rocha et al., 2007; Oosterling et al., 2010; Carter et al., 2011) of the following outcomes: parent's engagement with the child and child's engagement with the parent.

Seven studies assessed the parent's engagement in interactions with their child using different scales that were all based on observing an interaction period lasting a few minutes during which the parent and child played together. Four of these studies reported mixed results of intervention programs on parental engagement. More precisely, the studies reported a moderate increase in the parent's responsivity (Mahoney & Perales, 2003; 2005; Carter et al., 2011; Green et al., 2013) and positive affect (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005) after the intervention. However, no significant change was reported in directiveness (Mahoney & Perales, 2003; 2005; Green et al., 2013) and achievement orientation, which refers to the parent's encouragement of the child's achievement and the quality of praise provided to the child (Mahoney & Perales, 2003; 2005) post-intervention. Both studies that assessed parent engagement with their child at follow-up reported that gains

observed in the intervention period were not maintained (Rocha et al., 2007; Carter et al., 2011).

Eight studies analyzed the child's engagement with the parent during play. Mahoney and Perales (2003; 2005) reported significant improvement in children's social interactive behavior generally with their parents. However, most studies targeted specific components of children's engagement and reported mixed results. For example, children's responsivity to parents' joint attention bids (Rocha et al., 2007; Kasari et al., 2010) and children initiating joint attention bids in parent-child interactions (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009) increased moderately in most studies. However, Kasari and colleagues (2010) did not report greater initiations of joint attention in children who received the parent training intervention compared to a waitlist control group. Kasari and colleagues (2010) also assessed the effects of interventions on the types of engagement and found that children increased their joint engagement with their parents and reduced their engagement in object-focused play. An increase in attention toward parents was also reported in three other studies (Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2009; Vismara et al., 2009). Interestingly, changes in children's engagement were less significant in generalization contexts such as with the therapist instead of the parent (Vismara et al., 2009) or at home instead of in the clinic where intervention sessions were conducted (Rocha et al., 2007).

Finally, only two studies assessed maintenance of children's improved engagement with their parent and they both reported mixed results. More precisely, the increase in children's engagement with their parents was maintained for most, but not all, children (Rocha et al., 2007; Vismara et al., 2009).

4. Discussion

To sum up, 15 studies on parent training interventions for toddlers with ASD were included in this systematic review. There was substantial heterogeneity between these 15 studies, particularly with respect to the intervention programs and assessment measures used. Consequently, the results could not be compiled in a quantitative analysis such as a meta-

analysis. Nevertheless, the research team used two classification systems that described the magnitude of change (positive, mixed, no, or negative effects) and the certainty of evidence (suggestive, preponderant, or conclusive evidence) to summarize the meaningfulness of the differences found in each study. However, most studies on parent training interventions included in the review had low levels of certainty of evidence (as a result of methodological limitations) and the magnitudes of changes were hard to judge (few effect size data available). Thus, despite the use of two classification systems, the results must be interpreted with caution because of the substantial variability and methodological limitations that make comparison between studies difficult.

Despite these limitations, most studies in the present review demonstrated that positive changes can be obtained in young children with ASD following a parent training intervention. In fact, the 15 studies reviewed reported substantial but inconsistent gains in this group of children in communication, socio-emotional functioning, symptom severity and play. These results are consistent with the work of McConachie and Diggle (2007), who concluded that there is a good reason to think that the training of specific skills for parents may produce positive changes in children under seven years of age diagnosed with ASD. However, the current lack of experimental studies with large sample sizes that take place in the clinical real world (rather than a university-based clinic) make it impossible to reach firm conclusions regarding the effectiveness of parent training interventions in supporting the development of toddlers with ASD.

Furthermore, parents' attitudes and skills showed great improvement following parental training interventions. In fact, parents who participated in these interventions for toddlers with ASD consistently reported a high degree of satisfaction. Similarly, a qualitative study exploring the experience of parents of children with ASD from 28 to 37 months of age who participated in the *More Than Words*® parent education program reported that parents viewed the MTW program as a good starting point for learning how to help their child with ASD (Patterson & Smith, 2011).

In general, parents also showed high rates of fidelity of strategy implementation after the training period. The ability of parents to learn how to implement strategies adapted to their child and their satisfaction with the parent training show the feasibility of using parent-mediated interventions with parents of toddlers at risk of or diagnosed with ASD. These results are consistent with previous reviews of parent-mediated interventions for older children with ASD (Matson, Mahan & Matson, 2009; Lang, Machalicek, Rispoli & Regeher, 2009; Patterson, Smith & Mirenda, 2012). For instance, a systematic review of parent training interventions that targeted the communication skills of children with ASD aged 10 years and younger (Lang et al., 2009) reported similar results. Parents included in that review reported high levels of satisfaction and acceptability with the intervention programs. In addition, they were able to implement communication interventions more accurately following training (Lang et al., 2009). Finally, Lang and colleagues' review (2009) also reported that parents were still able to implement interventions correctly in six of the seven studies that looked at maintenance data (Lang et al., 2009). This was also reported in the only study in our review that included follow-up data on implementation (Vismara et al., 2009).

Also, that review reported mixed effects of parent training interventions on parental stress, which is consistent with the inconclusive results reported by Oono and colleagues (2013). However, this contradicts the hypothesis that parental stress decreases in low-intensity treatments while it increases in high-intensity interventions (Brookman-Frazee & Koegel, 2004; Keen, Reid & Arnone, 2010). Thus, parent training interventions may reduce the number of hours of intervention with a therapist. However, parents in the parent training group rated their workload as higher than those assigned to the intensive early intervention implemented by a therapist (Smith, Groen & Wynn, 2000). Considering that the workload perceived by parents may be an important factor related to stress levels, future parent training programs should take into account the reality of parents of children with ASD, who are significantly more stressed than parents of children with typical development or with other neurodevelopmental disabilities (Abbeduto et al., 2004; Baker-Ericzn, Brookman-Frazee & Stahmer, 2005). Effective parent training programs for toddlers with ASD should therefore limit parents' workload. The high level of stress in families of children with ASD may also explain why, even though parent training is associated with a decrease in stress and an

increase in the sense of competence of parents of preschoolers with attention deficit hyperactivity disorder (Pisterman et al., 1992), the effects of such interventions are different for parents of children with ASD. Future studies should include an assessment of the effects of parent training interventions on parental stress and other well-being outcomes such as self-competence and empowerment.

Overall, the results of this review are consistent with those of a meta-analytic review of parent training programs for toddlers with behavior problems but without developmental disabilities (Kaminski et al., 2008). The meta-analysis found greater effect sizes for parental outcomes than for children's outcomes. In fact, considering that parent-mediated interventions are by definition multilevel and involve the transfer of an intervention from the trainer to the parent and then from the parent to the child (Ingersoll & Wainer, 2013), parents have a role as change agents for their child's development. The assumption that parental outcomes are more direct than child outcomes explains the greater and more consistent effects on parental outcomes in Kaminski and colleagues' meta-analysis. Similarly, parent training interventions are likely to have greater effects on proximal parental outcomes such as knowledge about ASD, use of specific strategies and attitudes, than on more distal parental outcomes such as stress levels. Also, it is important to consider that parents need to first learn the different strategies, then it may take some time before they begin to implement the strategies in their everyday activities and in different settings (Cordisco, Strain & Depew, 1988), and still more time is needed before the effects on the children's behavior or skills are observable (Diggle, McConachie & Randle, 2002). Consequently, effects of parent-mediated interventions may only become apparent weeks after the end of the intervention, giving time for changes to happen at the child level. To capture possible improvements after interventions, follow-up seems to be an important aspect of parent training study design that has been poorly assessed.

Finally, few studies looked specifically at parent-child interactions outcomes and most of them reported mixed results. The lack of scientific evidence prevents us from drawing definitive conclusions about the effects of parent training interventions on parent-child interactions. However, a review of parent-mediated interventions for children with ASD under 7 years of age reported strong and statistically significant positive changes in patterns

of parent-child interactions (Oono et al., 2013). Knowing that parent-mediated interventions are based on the assumption that the effects of the intervention depend on the parents implementing the strategies in their interaction with their child, and consequently on parents' responsiveness to their child (Mahoney & Perales, 2003), parent-child interactions are a very important outcome to assess. Future studies should include an assessment of parent training effects on parent-child interactions as a potential mediator of the effectiveness of parent-mediated interventions for toddlers with ASD.

5. Conclusion

This review shows that parent training interventions are a promising way to foster children's development by enhancing parent-child interactions. In fact, parents who received parent training interventions for their young child with ASD were able to learn and implement strategies to foster their child's development and were very satisfied with the program. However, poor evidence concerning children's skills, parents' well-being and parent-child interactions outcomes prevent us reaching definitive conclusions regarding the effects of parent training interventions.

Conflict of Interests

The authors declare that there is no conflict of interests regarding the publication of this paper.

References

- Abbeduto, L., Seltzer, M. M., Shattuck, P., Krauss, M. W., Orsmond, G., & Murphy, M. M. (2004). Psychological well-being and coping in mothers of youths with autism, Down syndrome, or fragile X syndrome. *American Journal of Mental Retardation*, 109(3), 237-254.
- Baio, J. (2012). Prevalence of autism spectrum disorders: Autism and developmental disabilities monitoring network, 14 sites, United States, 2008. Morbidity and Mortality Weekly Report. Surveillance Summaries. Vol. 61, No. 3. Atlanta, GA: Centers for Disease Control and Prevention.
- Baker-Ericzn, M. J., Brookman-Frazee, L., & Stahmer, A. (2005). Stress levels and adaptability in parents of toddlers with and without autism spectrum disorders. *Research and Practice for Persons with Severe Disabilities*, 30(4), 194-204.
- Brookman-Frazee, L., & Koegel, R. (2004). Using parent/clinician partnerships in parent education programs for children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 6(4), 195-213.
- Carpenter, M., Nagell, K., Tomasello, M., Butterworth, G., & Moore, C. (1998). Social cognition, joint attention, and communicative competence from 9 to 15 months of age. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 63(4), i-174.
- Carter, A. S., Messinger, D. S., Stone, W. L., Celimli, S., Nahmias, A. S., & Yoder, P. (2011). A randomized controlled trial of Hanen's 'More than words' in toddlers with early autism symptoms. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 52(7), 741-752.
- Cordisco, L. K., Strain, P. S., & Depew, N. (1988). Assessment for generalization of parenting skills in home settings. *Journal of the Association for Persons with Severe Handicaps*, 13(3), 202-210.
- Dabrowska, A., & Pisula, E. (2010). Parenting stress and coping styles in mothers and fathers of pre-school children with autism and Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 54(3), 266-280.
- Davis, N. O., & Carter, A. S. (2008). Parenting stress in mothers and fathers of toddlers with autism spectrum disorders: Associations with child characteristics. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38(7), 1278-1291.

- Dawson, G. (2008). Early behavioral intervention, brain plasticity, and the prevention of autism spectrum disorder. *Development and Psychopathology*, 20(3), 775-803.
- Dawson, G., Carver, L., Meltzoff, A. N., Panagiotides, H., McPartland, J., & Webb, S. J. (2002). Neural correlates of face and object recognition in young children with autism spectrum disorder, developmental delay, and typical development. *Child Development*, 73(3), 700-717.
- Dawson, G., Webb, S. J., Wijsman, E., Schellenberg, G., Estes, A., Munson, J., & Faja, S. (2005). Neurocognitive and electrophysiological evidence of altered face processing in parents of children with autism: Implications for a model of abnormal development of social brain circuitry in autism. *Development and Psychopathology*, 17, 679–697.
- Dawson, G., Jones, E. J., Merkle, K., Venema, K., Lowy, R., Faja, S., ... Winter, J. (2012). Early behavioral intervention is associated with normalized brain activity in young children with autism. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 51(11), 1150-1159.
- Diggle, T., McConachie, H., & Randle, V. (2002). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorder. *The Cochrane Database of Systematic Reviews*, 2.
- Drew, A., Baird, G., Baron-Cohen, S., Cox, A., Slonims, V., Wheelwright, S., ... Charman, T. (2002). A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 11(6), 266-272.
- Dumas, J. E., Wolf, L. C., Fisman, S. N., & Culligan, A. (1991). Parenting stress, child behavior problems, and dysphoria in parents of children with autism, Down syndrome, behavior disorders, and normal development. *Exceptionality: A Special Education Journal*, 2(2), 97-110.
- Elsabbagh, M., & Johnson, M. H. (2010). Getting answers from babies about autism. *Trends in Cognitive Science*. 14(2), 81-87.
- Estes, A., Hus, V., & Elder, L. (2011). Family adaptive functioning in autism. In D. Amaral, G. Dawson, & D. Geschwind (Eds.), *Autism Spectrum Disorders* (pp. 1182-1195). Oxford University Press.

- Estes, A., Munson, J., Dawson, G., Koehler, E., Zhou, X., & Abbott, R. (2009). Parenting stress and psychological functioning among mothers of preschool children with autism and developmental delay. *Autism, 13*(4), 375-387.
- Fenson, L., Dale, P. S., Reznick, J. S. Thal, D. Bates, E., Hartung J. P., ... Reilly, J. S. (1993). *The MacArthur Communicative Development Inventories: User's Guide and Technical Manual*. Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing Co.
- Freeman, B. J., Ritvo, E. R., Yokota, A., & Ritvo, A. (1986). A scale for rating symptoms of patients with the syndrome of autism in real life settings. *Journal of the American Academy of Child Psychiatry, 25*(1), 130-136.
- Ganz, M. L. (2007). The lifetime distribution of the incremental societal costs of autism. *Archives of Pediatrics & Adolescent Medicine, 161*(4), 343-349.
- Green, J., Wan, M. W., Guiraud, J., Holsgrove, S., McNally, J., Slonims, V., ... Johnson, M. (2013). Intervention for infants at risk of developing autism: A case series. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 43*(11), 2502-2514.
- Green, S. (2005). Systematic reviews and meta-analysis. *Singapore Medical Journal, 46*(6), 270-274.
- Greenspan, S. I., & Wieder, S. (2006). *Engaging autism: Using the floortime approach to help children relate, communicate, and think*. Da Capo Press.
- Grelotti, D., Gauthier, I., & Schultz, R. (2002). Social interest and the development of cortical face specialization; what autism teaches us about face processing. *Developmental Psychobiology, 40*, 213-225.
- Gulsrud, A. C., Jahromi, L. B., & Kasari, C. (2010). The co-regulation of emotions between mothers and their children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorder. 40*, 227-237.
- Higgins J. P. T., & Green S. (2006). *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions 4.2.6*, Cochrane Library, Issue 4. Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd.
- Ingersoll, B., & Wainer, A. (2013). Initial efficacy of Projet ImPACT: A parent-mediated social communication intervention for young children with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. Advance online publication. doi: 10.1007/s10803-013-1840-

- Johnson, M. H. (2000). Functional brain development in infants: Elements of an interactive specialization framework. *Child Development*, 71(1), 75-81.
- Johnson, M. H., Griffin, R., Csibra, G., Halit, H, Farroni, T., De Haan, M., ... Richards, J. (2005). The emergence of the social brain network: Evidence from typical and atypical development. *Development and Psychopathology*, 17(3), 599-619.
- Kaminski, J. W., Valle, L. A., Filene, J. H., & Boyle, C. L. (2008). A meta-analytic review of components associated with parent training program effectiveness. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 36(4), 567-589.
- Kasari, C., Gulsrud, A. C., Wong, C., Kwon, S., & Locke, J. (2010). Randomized controlled caregiver mediated joint engagement intervention for toddlers with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(9), 1045-1056.
- Keen, D., Reid, F., & Arnone, D. (2010). Autism, ethnicity and maternal immigration. *The British Journal of Psychiatry*, 196(4), 274-281.
- Knapp, M., Romeo, R., & Beecham, J. (2009). Economic cost of autism in the UK. *Autism*, 13(3), 317-336.
- Koegel, R. L., Bimbela, A., & Schreibman, L. (1996). Collateral effects of parent training on family interactions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 26(3), 347-359.
- Koegel, R. L., Bruinsma, Y. & Koegel, L. K. (2006). Developmental trajectories in early intervention. In R. L. Koegel & L. K. Koegel (Eds.), *Pivotal response treatments for autism* (pp. 131-140). Baltimore, MD: Brookes.
- Kuhl, P. (2007). Is speech learning “gated” by the social brain? *Developmental Science*, 10, 110-120.
- Kuhl, P. K., Coffey-Corina, S., Padden, D., & Dawson, G. (2005). Links between social and linguistic processing of speech in preschool children with autism: Behavioral and electrophysiological evidence. *Developmental Science*, 8, 1-12.
- Lang, R., Machalicek, W., Rispoli, M., & Regehr, A. (2009). Training parents to implement communication interventions for children with autism spectrum disorders (ASD): A systematic review. *Evidence-Based Communication Assessment and Intervention*, 3(3), 174-190.

- Lang, R., O'Reilly, M., Healy, O., Rispoli, M., Lydon, H., Streusand, W., . . . Lancioni, G. (2012). Sensory integration therapy for autism spectrum disorders: A systematic review. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6(3), 1004-1018.
- Lord C, Rutter, M., DiLavore, P., & Risi, S. (2001). *Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) manual*. Los Angeles, CA: Western Psychological Services.
- Lovaas, O. I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 55(1), 3-9.
- Machalicek, W., O'Reilly, M. F., Beretvas, N., Sigafoos, J., Lancioni, G., Sorrells, A., . . . Rispoli, M. (2008). A review of school-based instructional interventions for students with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 2(3), 395-416.
- Mahoney, G., & Perales, F. (2003). Using relationship-focused intervention to enhance the social-emotional functioning of young children with autism spectrum disorders. *Topics in Early Childhood Special Education*, 23(2), 74-86.
- Mahoney, G., & Perales, F. (2005). Relationship-focused early intervention with children with pervasive developmental disorders and other disabilities: A comparative study. *Developmental and Behavioral Pediatrics*, 26(2), 77-85.
- Matson, M. L., Mahan, S., & Matson, J. L. (2009). Parent training: A review of methods for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3(4), 868-875.
- McConachie, H., & Diggle, T. (2007). Parent implemented early intervention for young children with autism spectrum disorder: A systematic review. *Journal of Evaluation in Clinical Practice*, 13(1), 120-129.
- McEachin, J. J., Smith, T., & Ivar Lovaas, O. (1993). Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *American Journal of Mental Retardation*, 97, 359-372.
- Meadan, H., Ostrosky, M. M., Zaghlawan, H. Y., & Yu, S. (2009). Promoting the social and communicative behavior of young children with autism spectrum disorders A review of parent-implemented intervention studies. *Topics in Early Childhood Special Education*, 29(2), 90-104.

- Mori, K., Ujiie, T., Smith, A., & Howlin, P. (2009). Parental stress associated with caring for children with Asperger's syndrome or autism. *Pediatrics International*, 51(3), 364-370.
- Odom, S. L., Collet-Klingenberg, L., Rogers, S. J. & Hatton, D. D. (2010). Evidence-based practices in interventions for children and youth with autism spectrum disorders. *Preventing School Failure*, 54(4), 275-282.
- Odom, S. L., Boyd, B. A., Hall, L. J. & Hume, K. (2010). Evaluation of comprehensive treatment models for individuals with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(4), 425-436.
- Oono, I. P., Honey, E. J., & McConachie, H. (2013). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorders (ASD). *The Cochrane Database of Systematic Reviews*, 4.
- Oosterling, I., Visser, J., Swinkels, S., Rommelse, N., Donders, R., Woudenberg, T., ...Buitelaar, J. (2010). Randomized controlled trial of the focus parent training for toddlers with autism: 1-year outcome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(12), 1447-1458.
- Palmen, A., Didden, R., & Lang, R. (2012). A systematic review of behavioral intervention research on adaptive skill building in high-functioning young adults with autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6(2), 602-617.
- Patterson, S. Y., & Smith, V. (2011). The experience of parents of toddlers diagnosed with autism spectrum disorder in the More Than Words parent education program. *Infants & Young Children*, 24(4), 329-343.
- Patterson, S. Y., Smith, V., & Mirenda, P. (2012). A systematic review of training programs for parents of children with autism spectrum disorders: Single subject contributions. *Autism*, 16(5), 498-522.
- Pisterman, S., Firestone, P., McGrath, P., Goodman, J. T., Webster, I., Mallory, R., & Goffin, B. (1992). The role of parent training in treatment of preschoolers with ADDH. *American Journal of Orthopsychiatry*, 62(3), 397-408.
- Prizant, B. M., & Wetherby, A. M. (1998). Understanding the continuum of discrete-trial traditional behavioral to social-pragmatic developmental approaches in communication enhancement for young children with autism/PDD. *Seminars in Speech and Language*, 19(4) 329-353.

- Reilly, S., Bavin, E. L., Bretherton, L., Conway, L., Eadie, P., Cini, E., ... & Wake, M. (2009). The Early Language in Victoria Study (ELVS): A prospective, longitudinal study of communication skills and expressive vocabulary development at 8, 12 and 24 months. *International Journal of Speech and Language Pathology*, 11(5), 344-357.
- Rocha, M., Schreibman, L., & Stahmer, A. C. (2007). Effectiveness of training parents to teach joint attention in children with autism. *Journal of Early Intervention*, 39(2), 154-172.
- Rogers, S., & Wallace, K. (2011). Intervention for infants and toddlers with autism spectrum disorders. In D. Amaral, G. Dawson, & D. Geshwind (Eds.), *Autism Spectrum Disorders* (pp. 1182-1195). Oxford University Press.
- Rogers, S. J., & Dawson, G. (2010). *Early Start Denver Model for young children with autism: Promoting language, learning, and engagement*, Guilford Press.
- Rogers, S. J., Estes, A., Lord, C., Vismara, L., Winter, J., Fitzpatrick, A., ... Dawson, G. (2012). Effects of a brief Early Start Denver Model (ESDM)-based parent intervention on toddlers at risk for autism spectrum disorders: A randomized controlled trial. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 51(10), 1052-1065.
- Rogers, S. J., & Vismara, L. A. (2008). Evidence-based comprehensive treatments for early autism. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 37(1), 8-38.
- Schertz, H. H., & Odom, S. L. (2007). Promoting joint attention in toddlers with autism: A parent-mediated developmental model. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(8), 1562-1575.
- Smith, T., Groen, A. D., & Wynn, J. W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *American Journal on Mental Retardation*, 105(4), 269-285.
- Steiner, A. M., Gengoux, G. W., Klin, A., & Chawarska, K. (2013). Pivotal response treatment for infants at-risk for autism spectrum disorders: A pilot study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(1), 91-102.
- Vismara, L. A., Colombi, C., & Rogers, S. J. (2009). Can one hour per week of therapy lead to lasting changes in young children with autism? *Autism*, 13(1), 93-115.
- Vismara, L. A., & Rogers, S. J. (2008). The Early Start Denver Model: A case study of an innovative practice. *Journal of Early Intervention*, 31(1), 91-108.

- Wetherby, A. M., & Woods, J. J. (2006). Early social interaction project for children with autism spectrum disorders beginning in the second year of life: A preliminary study. *Topics in Early Childhood Special Education, 26*(2), 67-82.
- Wong, V. C., & Kwan, Q. K. (2010). Randomized controlled trial for early intervention for autism: A pilot study of the autism 1-2-3 project. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 40*(6), 677-688.
- Zwaigenbaum, L. (2010). Advances in the early detection of autism. *Current Opinion in Neurology, 23*(2), 97-102.
- Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Lord, C., Rogers, S., Carter, A., Carver, L., . . . Dobkins, K. (2009). Clinical assessment and management of toddlers with suspected autism spectrum disorder: Insights from studies of high-risk infants. *Pediatrics, 123*(5), 1383-1391.
- Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Rogers, T., Roberts, W., Brian, J., & Szatmari, P. (2005). Behavioral manifestations of autism in the first year of life. *International Journal of Developmental Neuroscience, 23*(2), 143-152.

Depuis la publication de l'article *Parent training interventions for toddlers with autism spectrum disorder* (Beaudoin et al., 2014), de nouveaux articles ont été publiés évaluant les effets d'un programme d'accompagnement parental pour des jeunes enfants de 3 ans ou moins avec un diagnostic ou une suspicion de TSA. En fait, en reprenant les mêmes critères d'inclusion que pour la recension systématique des écrits présentée à la section 2.3.1 *Article 1: Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder*, douze études permettent de mettre à jour la recension publiée en 2014.

Pour être inclus, les articles devaient répondre aux quatre critères d'inclusion suivants :

- (1) Tous les enfants inclus doivent être à risque ou avoir un diagnostic de TSA
- (2) Plus de 50% des enfants doivent être âgés de 36 mois ou moins lors du recrutement (si cette donnée n'est pas disponible, l'âge moyen des participants doit être inférieur à 36 mois) et tous les enfants inclus dans les études doivent être âgés de 5 ans ou moins.
- (3) Au moins un parent (ex. : père, mère, parent adoptif, grands-parents ou autre proche) doit avoir été formé à l'utilisation de techniques spécifiques pour promouvoir le développement d'enfants ayant un TSA par un (ou des) professionnel(s). Les parents doivent avoir reçu une supervision régulière et du soutien des professionnels. La formation peut avoir impliqué un accompagnement individuel ou de groupe, ainsi que se dérouler à la maison ou en clinique. Les études qui évaluaient les effets d'intervention autre que de l'accompagnement parental (ex. : intervention intensive individuelle) ont été exclues de la recension s'ils ne rapportaient pas séparément des effets d'un programme d'accompagnement parental.
- (4) Les effets de l'intervention doivent avoir été rapportés par des données quantitatives. Les données quantitatives provenant de devis mixtes pouvaient être incluses si elles rapportaient des effets de l'intervention.

À l'instar de l'article *Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder* (Beaudoin et al., 2014), les 12 articles publiés entre 2014 et 2017 sont résumés en deux tableaux similaires à ceux de l'article de Beaudoin et collaborateurs (2014).

Le tableau 3 présente la description des 12 études. Il est important de souligner que neuf des 12 études (75%) répertoriées depuis 2014 ont utilisé comme devis un essai clinique randomisé, ce qui démontre l'augmentation de la rigueur méthodologique par rapport aux 15 études répertoriées en 2014, dont huit (53%) comprenaient un groupe de comparaison, et dont seulement six (40%) étaient des essais cliniques randomisés (Beaudoin et al., 2014). En plus d'utiliser des devis de plus en plus rigoureux, deux de ces six études ont utilisé des groupes de comparaison actifs, leur permettant de comparer les effets d'une modalité individuelle par rapport à recevoir l'intervention en groupe (Wetherby et al., 2014) ou encore afin de comparer des méthodes d'accompagnement à des techniques psychoéducatives de soutien parental (Kasari et al., 2015). Les sept autres essais cliniques randomisés ont, quant à eux comparé l'effet d'un programme d'accompagnement parental aux traitements usuels (Estes et al., 2014; Green et al., 2015; Gulsrud et al., 2016; Jones et al., 2017; Kasari et al., 2014; Watson et al., 2017).

Également, toujours en lien avec les études répertoriées et résumées dans le tableau 3, il est intéressant de soulever l'apport novateur de l'article de Jones et collaborateurs (2017). De fait, cette étude a permis de démontrer la faisabilité et l'utilité d'utiliser des mesures neurophysiologiques afin de quantifier les changements à la suite d'un programme d'accompagnement parental (Jones et al., 2017). Ces mesures neurophysiologiques permettent ainsi de pallier à certaines limites que présentent les outils cliniques actuellement utilisés, dont une faible sensibilité des outils standardisés et des biais de mémoire et de désirabilité sociale liés aux questionnaires auto-rapportés par les parents qui ne peuvent être à l'insu de l'intervention reçue.

Tableau 3

Description des études publiées entre 2014 et 2017 étudiant les effets de programmes d'accompagnement parental pour des très jeunes enfants avec un TSA

| Études | Caractéristiques des participants | | | Méthodologie | |
|-----------------------|-----------------------------------|-------------------------------------|---|---|---|
| | n total (groupe intervention) | Âge en mois Moyenne (min-max) | Diagnostic | Devis | Condition de contrôle |
| Estes et al., 2014 | 82 (Intervention = 44) | 21.1 (14-24) | À risque de TSA | Essai contrôlé randomisé | Traitement usuel |
| Kasari et al., 2014 | 66 (Intervention = 34) | 14.7 (15-31) | À risque de TSA | Essai contrôlé randomisé | 4 séances de supervision non spécifiques aux interactions parent-enfant |
| Rogers et al., 2014 | 32 (Intervention = 7) | (6-15) | Risque de TSA basé sur l'histoire familiale | Devis préexpérimental avec groupes de comparaison | 4 groupes de comparaison recevant le traitement usuel |
| Wetherby et al., 2014 | 82 (Int. individuelle = 42) | 19.6 (16-20) | Diagnostic de TSA | Essai contrôlé randomisé | Intervention de groupe |
| Green et al., 2015 | 54 (Intervention = 28) | 9.2 (7-10) | Risque de TSA basé sur l'histoire familiale | Essai contrôlé randomisé | Pas d'intervention |
| Kasari et al., 2015 | 86 (Intervention = 43) | 31.5 (22-36) | Diagnostic de TSA | Essai contrôlé randomisé | Intervention psychoéducative de soutien parental |
| Brian et al., 2016 | 20 | 22 (12-32) | TSA suspecté ou confirmé | Devis préexpérimental (pré-/post-intervention) | s.o. |
| Gulsrud et al., 2016 | 86 (Intervention = 43) | 31.5 (22-36) | Diagnostic de TSA | Essai contrôlé randomisé | Intervention psychoéducative de soutien parental |
| Bradshaw et al., 2017 | 3 | 17.7 | À risque de TSA | Étude de cas multiple | s.o. |
| Green et al., 2017 | 54 (Intervention = 28) | 9.2 (7-10) | Risque de TSA basé sur l'histoire familiale | Essai contrôlé randomisé | Pas d'intervention |
| Jones et al., 2017 | 33 (Intervention = 19) | 9 (9-9) | Risque de TSA basé sur l'histoire familiale | Essai contrôlé randomisé | Pas d'intervention |
| Watson et al., 2017 | 87 (Intervention = 45) | 13.8 (13-16) | À risque de TSA | Essai contrôlé randomisé | Traitement usuel (référence intervention précoce) |

Tableau 3 (suite)

| Études | Caractéristiques de l'intervention | | | | |
|-----------------------|---|----------------------------------|---|-----------------------|--|
| | Type d'intervention | Contexte | Fréquence et durée recommandée | Heures d'intervention | Habiletés/comportements ciblés chez l'enfant |
| Estes et al., 2014 | Approche globale intégrant des stratégies comportementales et développementales | Clinique | 12 séances (60 minutes) hebdomadaires | 12 heures | Attention et motivation, routines sociosensorielles, engagement conjoint, communication non verbale, imitation, attention conjointe, langage et comportement |
| Kasari et al., 2014 | Approche développementale basée sur le jeu | Maison | 12 séances (90 minutes) hebdomadaires | 18 heures | Jeu conjoint entre le parent et l'enfant |
| Rogers et al., 2014 | Approche globale intégrant des stratégies comportementales et développementales | Clinique | 12 séances (60 minutes) hebdomadaires + 0 à 5 sessions de rappel au besoin | 12 heures | Attention et motivation, routines sociosensorielles, engagement conjoint, communication non verbale, imitation, attention conjointe, langage et comportement |
| Wetherby et al., 2014 | Approche globale basée sur des stratégies développementales | Maison Clinique Communauté | 2 séances/semaine x 6 mois 1 séance/semaine x 3 mois 1 séance/semaine x 6 mois 1 séance/semaine x 3 mois | Non spécifié | Communication sociale, régulation émotionnelle et soutien transactionnel |
| Green et al., 2015 | Approche développementale facilitée par rétroaction vidéo | Maison | 12 sessions (90 minutes) pendant 5 mois | 18 heures | Engagement social et réciprocité |
| Kasari et al., 2015 | Approche globale intégrant des stratégies comportementales et développementales | Non spécifié | 2 séances (30 minutes) /semaine x 10 semaines | 10 heures | Engagement conjoint, attention conjointe, gestes et jeu |
| Brian et al., 2016 | Approche globale intégrant des stratégies comportementales et développementales | Maison | 12 séances hebdomadaires (60-90 minutes) | 12-18 heures | Communication, partage émotif, motivation, attention, jeu et comportement |
| Gulrud et al., 2016 | Approche globale intégrant des stratégies comportementales et développementales | Non spécifié | 2 séances (30 minutes) /semaine x 10 semaines | 10 heures | Engagement conjoint, attention conjointe, gestes et jeu |
| Bradshaw et al., 2017 | Approche intégrant des stratégies comportementales et développementales | Maison | 12 séances hebdomadaires (60 minutes) | 12 heures | Communication expressive |
| Green et al., 2017 | Approche développementale facilitée par rétroaction vidéo | Maison | 12 sessions (90 minutes) x 5 mois | 18 heures | Engagement social et réciprocité |
| Jones et al., 2017 | Approche basée sur la relation parent-enfant | Maison | 10 séances hebdomadaires (60-85 minutes) | 10-14 heures | Développement socioémotionnel |
| Watson et al., 2017 | Approche basée sur la relation parent-enfant | Maison | 30 séances pendant 8 mois | Non spécifié | Communication sociale et régulation sensorielle |

Le tableau 4 résume, quant à lui, les effets des différents programmes d'accompagnement parental qui ont été évalués dans les sept études publiées entre 2014 et 2017. À l'instar de la présentation des résultats dans l'article initial (Beaudoin et al., 2014), deux classifications ont été utilisées afin de simplifier la présentation et l'interprétation des données, soit (a) pour qualifier le degré de rigueur méthodologique et (b) pour qualifier les résultats aux différentes variables.

Premièrement, la rigueur méthodologique a été classifiée comme « suggestive », « prépondérante » ou « concluante » (Lang et al., 2012; Palmen et al., 2012) en fonction des mêmes critères que ceux utilisés dans l'article de Beaudoin et collaborateurs (2014). Ainsi, la classification « suggestive » était attribuée aux études de plus faible rigueur méthodologique, incluant les études n'utilisant pas de devis expérimental avec groupe contrôle (ex.: devis préexpérimental, devis quasi expérimental). La classification « prépondérante » était attribuée aux études expérimentales avec suffisamment de détails pour pouvoir être répliquée ainsi qu'un haut taux de fidélité d'implantation (au moins 80% pour 20% des sessions). Finalement, la classification « concluante » était attribuée aux études expérimentales ayant tous les attributs des études de niveau « prépondérant » en plus de comporter des composantes permettant un certain contrôle pour interpréter les résultats de l'intervention et les explications alternatives ainsi qu'une mesure de fidélité d'intervention qui évalue le degré d'implantation des stratégies spécifiques à l'intervention par les parents et/ou les thérapeutes tout au long du programme.

Deuxièmement, les résultats ont été simplifiés et classifiés en quatre catégories, soit des résultats « positifs », « mixtes », « nuls » ou « négatifs » en fonction de l'ampleur des changements résultant des programmes d'accompagnement parental, et ce pour les différentes variables évaluées dans chacun des sept articles. Des études antérieures ont utilisé les mêmes trois premières catégories afin de qualifier les résultats (Lang et al., 2012; Machalicek et al., 2008; Palmen et al., 2012). Les résultats étaient classés comme « positifs » s'il y avait une différence significative entre les groupes (études expérimentales) ou s'il y avait une augmentation des habiletés de tous les participants après l'intervention (devis à cas unique ou multiple). Les résultats « mixtes » étaient définis comme une tendance à court de

signification statistique (étude expérimentale) ou une amélioration seulement chez certains participants (devis à cas unique ou multiple). S'il n'y avait aucune amélioration significative (étude expérimentale) ou qu'aucun participant ne démontrait d'amélioration (devis à cas unique ou multiple), les résultats étaient alors classifiés comme « nuls ». Finalement la catégorie « négative » qui avait été ajoutée dans l'article de Beaudoin et collaborateurs (2014) a été conservée afin de représenter les résultats qui rapportaient des changements statistiquement significatifs entre les groupes en faveur du groupe contrôle (étude expérimentale) ou si une détérioration était observée chez les habiletés de la plupart des participants (devis à cas unique ou multiple).

Tableau 4
Effets des programmes d'accompagnement parental pour des très jeunes enfants avec un TSA en fonction des résultats d'études publiées entre 2014 et 2017

| Études | Temps de suivi après l'intervention | Degré d'évidence | Variables liées à l'enfant | | | |
|-----------------------|-------------------------------------|------------------|----------------------------|-------------------------|--------------------|--|
| | | | Communication Expressive | Communication Réceptive | Socio-émotionnelle | Autres |
| Estes et al., 2014 | s.o. | Prépondérant | – | – | – | – |
| Kasari et al., 2014 | 9 mois | Prépondérant | PI : Aucun S : Aucun | PI : Aucun S : Aucun | – | Cognition (PI : Aucun; S : Aucun) |
| Rogers et al., 2014 | variable | Suggestif | Mixte | | – | Cognition : Aucun Symptômes autistiques : Positif Comportements adaptatifs : Mixte Cognition : Négatif |
| Wetherby et al., 2014 | s.o. | Prépondérant | Positif | Positif | – | Comportements adaptatifs : Mixte Cognition : Négatif |
| Green et al., 2015 | s.o. | Prépondérant | Aucun | Aucun | – | Comportements adaptatifs : Mixte |
| Kasari et al., 2015 | 6 mois | Prépondérant | PI : Aucun S : Aucun | PI : Aucun S : Aucun | – | Jeu (PI : Mixte; S : Mixte) Engagement conjoint en classe PI : Positif |
| Brian et al., 2016 | 3 mois | Suggestif | S : Positif | S : Positif | – | – |
| Gulsrud et al., 2016 | 6 mois | Prépondérant | – | – | – | – |
| Bradshaw et al., 2017 | s.o. | Suggestif | Positif | – | – | Symptômes autistiques : Positif |
| Green et al., 2017 | 2 ans | Prépondérant | S : Aucun | | – | Symptômes autistiques S : Positif Diagnostic S : Aucun |
| Jones et al., 2017 | 6-7 mois | Prépondérant | – | – | – | Attention sociale (PI : Positif ; S : Mixte) |
| Watson et al., 2017 | s.o. | Prépondérant | Positif | – | – | Symptômes autistiques : Aucun Régulation sensorielle : Aucun Cognition : Aucun Moteur : Positif |

Légende

PI : Post-intervention (effets de l'intervention mesurés après l'intervention)

S : Suivi (effets de l'intervention mesurée après un délai à la suite de la fin de l'intervention)

Tableau 4 (suite)

| Études | Variables parentales | | | | Variables d'interaction parent-enfant | | |
|-----------------------|---|---------------------------|---------------------|---|---------------------------------------|----------------------------------|--|
| | Fidélité d'implantation | Stress | Satisfaction | Autres | Engagement du parent | Engagement de l'enfant | Autres |
| Estes et al., 2014 | – | Mixte | – | Auto-efficacité parentale : Aucun | – | – | – |
| Kasari et al., 2014 | – | – | – | – | PI : Positif S : Négatif | PI : Aucun S : Aucun | – |
| Rogers et al., 2014 | Positif | – | Positif | Alliance thérapeutique: Positif | – | – | – |
| Wetherby et al., 2014 | – | – | – | – | – | – | – |
| Green et al., 2015 | – | – | – | – | Mixte | Mixte | – |
| Kasari et al., 2015 | – | PI : Négatif S : Aucun | – | – | – | PI : Positif S : Aucun | Durée de l'engagement conjoint (PI : Positif ; S: Aucun) |
| Brian et al., 2016 | PI : Positif S : Positif | – | PI : Positif | – | PI : Positif S : Aucun | PI : Positif S : Aucun | – |
| Gulrud et al., 2016 | Positif | – | – | – | – | – | – |
| Bradshaw et al., 2017 | Positif | Mixte | Positif | Anxiété : Mixte | – | – | – |
| Green et al., 2017 | – | – | – | – | S : Mixte | S : Mixte | – |
| Jones et al., 2017 | – | – | – | – | – | – | – |
| Watson et al., 2017 | Positif | – | – | – | Mixte | – | – |

Légende

PI : Post-intervention (effets de l'intervention mesurés après l'intervention)

S : Suivi (effets de l'intervention mesurés après un délai à la suite de la fin de l'intervention)

Malgré les améliorations et les innovations mentionnées précédemment dans les études évaluant les effets de programmes d'accompagnement parental, les résultats rapportés dans le tableau 4 mettent de l'avant des résultats similaires à l'article de Beaudoin et collaborateurs (2014). De fait, globalement, aucune conclusion définitive ne peut être tirée au niveau de l'efficacité de l'intervention de ce type de programme sur les variables liées au développement de l'enfant, au bien-être parental et à l'interaction parent-enfant.

Premièrement, les résultats les plus probants sont au niveau de l'utilisation des stratégies par les parents (Bradshaw et al., 2017; Brian et al., 2016; Gulsrud et al., 2016; Watson et al., 2017) et de la satisfaction de parents face au programme (Bradshaw et al., 2017; Brian et al., 2016; Estes et al., 2014). Ainsi, la conclusion de l'article de Beaudoin et collaborateurs (2014) qui rapportait que les parents « sont en mesure d'apprendre et d'implanter les stratégies pour favoriser le développement de leur enfant et qu'ils sont très satisfaits face au programme (traduction libre) » (Beaudoin et al., 2014) tient toujours.

Deuxièmement, une tendance vers des effets positifs semble également ressortir au niveau de l'interaction parent-enfant, notamment au niveau de l'engagement du parent auprès de son enfant (Brian et al., 2016; Green et al., 2015; Kasari et al., 2014, 2015; Watson et al., 2017), de l'engagement de l'enfant avec son parent (Brian et al., 2016; Green et al., 2015; Kasari et al., 2015) et du temps d'engagement conjoint dans le jeu (Kasari et al., 2015). Ces données au niveau de l'interaction parent-enfant semblent indiquer une tendance positive plus forte que ce qui a été précédemment rapporté (Beaudoin et al., 2014), ouvrant la porte à d'autres études pour valider l'effet des programmes d'accompagnement parental sur l'interaction parent-enfant et mieux comprendre le mécanisme d'action des programmes d'accompagnement parentaux.

Troisièmement, les résultats au niveau des variables liées au développement de l'enfant et au bien-être parental divergent énormément au point de limiter grandement l'interprétation des données. Néanmoins, il est important de souligner qu'il est possible que les effets de l'intervention soient limités par le temps de suivi nul ou limité des différentes études. De fait, le suivi longitudinal effectué auprès de jeunes enfants à risque de TSA basé sur leur histoire

familial a mis en relief un effet maximal de l'intervention 10 mois après la fin de l'intervention sur les symptômes autistiques manifestés (Green et al., 2015, 2017). Ces récents résultats mettent de l'avant l'importance d'évaluer l'effet de l'intervention après un certain délai à la suite de l'intervention.

Quatrièmement, les résultats au niveau du bien-être parental divergent également. À titre d'exemple, les récentes études rapportent à la fois une légère diminution du stress parental à la suite de la participation des parents à un programme d'accompagnement parental (Bradshaw et al., 2017; Estes et al., 2014) alors que Kasari et collaborateurs (2015) ont observé une augmentation du stress rapporté par ces parents. Ces données contradictoires empêchent de conclure sur les effets des programmes d'accompagnement parental sur le bien-être parental. Cette absence de données supportant les effets de programme d'accompagnement parental destiné aux jeunes enfants avec un TSA sur le bien-être parental est également préoccupante. De fait, en plus des données contradictoires, les caractéristiques liées à la famille sont peu souvent évaluées auprès des familles ayant un enfant avec un TSA (Vivanti et al., 2014), ce qui a empêché Debodinance et collaborateurs (2017) d'analyser l'effet des interventions sur ces variables dans leur récente méta-analyse (Debodinance et al., 2017). Comme rapporté récemment par Stahmer et Pellechia (2015) dans une lettre éditoriale dans le journal *Autism*, les programmes d'accompagnement parental adressé aux enfants avec un TSA gagneraient à tirer avantage des pratiques mises en place avec d'autres clientèles pédiatriques présentant des troubles psychiatriques. De fait, les pratiques de coaching utilisées auprès d'autres clientèles qui ciblent la réduction du stress parental et l'amélioration du fonctionnement familial semblent être des pistes de solutions intéressantes pour agir plus directement sur le bien-être parental. En d'autres mots, les auteurs résument leur propos comme suit :

Nous devons peut-être sortir de l'idée que les programmes médiés par les parents remplacent les traitements plus intensifs offerts par des professionnels qualifiés et plutôt examiner le rôle des stratégies implantées par les parents en ce qui concerne l'amélioration du fonctionnement familial et du stress en plus d'améliorer le développement de l'enfant (traduction libre) (Stahmer & Pellechia, 2015).

Ainsi, il est mis de l'avant qu'un virage est nécessaire afin que les programmes d'accompagnement parental ne ciblent pas le développement d'habiletés pour que les parents deviennent des thérapeutes, mais plutôt qu'ils les aident à réussir dans leur rôle de parent. Dans cette optique, des outils de mesure centrés sur le fonctionnement familial, le bien-être parental et la relation parent-enfant devraient être priorités (Stahmer & Pellecchia, 2015) permettant ainsi de mieux refléter les changements espérés, plutôt que de se concentrer sur le développement des habiletés de l'enfant.

1.3.2 Accompagnement parental pour des enfants avec un trouble du spectre de l'autisme au Québec

En 2003, le MSSS a énoncé dans le document « Un geste porteur d'avenir » qu'un des cinq objectifs à développer quant aux services offerts à la clientèle avec un TSA est d'offrir un « soutien adéquat aux familles et aux proches » (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). De plus, le rapport du protecteur du citoyen (2009) a mis l'accent sur l'importance de soutenir et outiller les familles pour qu'ils soient en mesure d'accompagner leur enfant en plus de mettre en évidence un aspect peu rapporté dans les écrits gouvernementaux et paragouvernementaux qui est la charge émotive et psychologique importante qui est portée par les parents (St-Germain, 2009). Relevant des besoins à la fois de formation et de soutien émotionnel, il était ainsi recommandé de mettre en place un soutien éducatif et de l'assistance aux parents (programmes éducatifs) afin de les aider à assumer leurs rôles parentaux en plus d'offrir des services psychosociaux visant l'adaptation de la famille (programmes thérapeutiques) (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003) ce qui fait référence aux deux types d'accompagnement parental définis au début de la section 2.3 *Accompagnement des parents ayant des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de trouble du spectre de l'autisme*.

Malgré les recommandations émises depuis le début des années 2000, lors du bilan de l'implantation des recommandations de l'implantation du plan d'action « Un geste porteur d'avenir », le soutien aux familles était toujours une lacune majeure de l'offre de services offerte aux enfants avec un TSA et à leur famille (Ministère de la santé et des services sociaux, 2012). Dans cette optique, l'INESSS recommande « que la formation aux parents

soit considérée comme prioritaire » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Ils recommandent notamment d'offrir aux parents une formation « intensive (au moins 1h/semaine) aux parents de façon circonstancielle (épisodes, blocs de 3 mois) à l'occasion des moments critiques tels que l'annonce du diagnostic » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Cet « accompagnement personnalisé, tenant compte des réalités complexes des familles, [vise à] optimiser les occasions qui se présentent et faciliter les interactions offertes au quotidien » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Cet accompagnement parental pourrait ainsi prendre diverses formes afin de répondre aux besoins spécifiques des parents. Ainsi, le contenu pourrait être variable et les interventions pourraient se dérouler de manière individuelle et/ou en groupe relativement homogène.

De plus, le groupe d'experts québécois rassemblés pour formuler les recommandations ont notamment signalé leur intérêt envers le « Early Start [Denver Model] (pour les enfants dès 18 mois) qui serait approprié pour les enfants à risque, les [TSA] présumés, et pour la première ligne » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Le *Early Start Denver Model* (ESDM) mentionné par l'INESSS est une approche intensive développée pour répondre aux besoins des jeunes enfants avec un TSA (Rogers & Dawson, 2010) qui nécessitent beaucoup de ressources professionnelles pour implanter au moins 15h/semaines l'intervention (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014).

1.3.3 Programme d'accompagnement parental de la thèse

Considérant à la fois l'intérêt rapporté par l'INESSS envers le ESDM, l'impossibilité de mettre en place ce programme sous format d'une intervention directe offerte par les intervenants ainsi que les données probantes émergentes sur l'utilisation du ESDM sous format d'accompagnement parental (Rogers et al., 2012b), le présent projet de recherche s'est grandement basé sur la version d'accompagnement parental du ESDM. De fait, la version d'accompagnement parental du ESDM, qui n'avait d'ailleurs pas été exploré par l'INESSS, est une alternative qui répond aux besoins à la fois d'utiliser une intervention précoce

développée spécifiquement pour les très jeunes enfants, de formation des parents et d'optimisation des ressources actuellement disponibles, notamment en première ligne.

Néanmoins, en se basant sur la littérature scientifique disponible qui fait état de résultats mixtes du programme d'accompagnement parental ESDM, le programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse s'est également inspiré du modèle SCERTS. De fait, la combinaison de ces deux approches, qui est détaillée dans la section 3.3.1 *Programme d'accompagnement parental*, a pour objectif d'optimiser les effets de l'intervention afin que le programme réponde aux besoins cliniques des familles québécoises ayant un jeune avec un TSA. Les évidences scientifiques des modèles ESDM et SCERTS seront détaillées dans les prochaines pages.

Early Start Denver Model (ESDM)

Le ESDM est une approche d'intervention de prise en charge globale développée par Rogers et Dawson (Rogers & Dawson, 2010) basés sur des modèles d'intervention développementaux, relationnels et comportementaux. L'ESDM intègre ainsi une vision sociopragmatique de l'intervention auprès des enfants avec un TSA, où le développement de l'enfant est conçu comme ayant lieu en contexte d'interaction entre l'enfant et son environnement social, à des stratégies comportementales démontrées comme efficaces avec cette clientèle, telles que l'apprentissage par répétition et l'utilisation de renforcements. Ce modèle d'intervention se base sur une conception interactive de l'autisme où les particularités neurologiques et l'apprentissage social s'influencent et amplifient les difficultés primaires chez les enfants avec un TSA, c'est-à-dire les interactions sociales et de la communication sociale déficitaires (Dawson et al., 1998). Ainsi, le but de cette intervention est de remettre l'enfant dans la boucle positive de l'apprentissage social et de réduire l'écart accumulé chez les enfants avec un TSA depuis leur naissance en raison de leur faible apprentissage social (Rogers, 2016).

Le ESDM (Rogers & Dawson, 2010) a été développé originalement comme une approche d'intervention intensive et a été démontré comme efficace lorsqu'appliqué par un thérapeute 25 heures par semaine dans un milieu clinique, favorisant le développement des enfants de

18 à 30 mois particulièrement au niveau des comportements adaptatifs, des habiletés de communication et du statut diagnostique (Dawson et al., 2010). Vismara et Rogers (2008) ont proposé un programme d'accompagnement parental basé sur l'*ESDM*. Huit études ont été publiées sur le programme d'accompagnement parental du *ESDM* dont deux ont documenté la faisabilité d'utiliser le *ESDM* comme programme d'accompagnement parental en télésanté (Vismara et al., 2013, 2016). Les six autres études publiées à ce sujet se sont intéressées à une prestation de services en présentiel avec le parent. Ces études incluent une étude de cas unique (Vismara & Rogers, 2008), une étude de cas multiple (Vismara et al., 2009), un essai pilote (Rogers et al., 2014) et deux essais cliniques randomisés (Estes et al., 2014; Rogers et al., 2012a).

Ces études soulignent la faisabilité d'utiliser le programme d'accompagnement parental du *ESDM* auprès de familles ayant un enfant avec une suspicion (Estes et al., 2014) ou un diagnostic de TSA (Rogers et al., 2012a; Vismara et Rogers, 2008; Vismara et al., 2009). Malgré des résultats prometteurs au niveau de la fidélité d'implantation des stratégies par les parents (Rogers et al., 2014; Vismara et Rogers, 2008; Vismara et al., 2009) menant à des améliorations des habiletés sociocommunicatives chez l'enfant (Vismara et Rogers, 2008; Vismara et al., 2009), les essais cliniques rapportent des résultats variables quant à l'effet du programme sur les interactions parent-enfant (Rogers et al., 2012a), le développement des enfants (Rogers et al., 2012a) et le bien-être parental (Estes et al., 2014). En fait, parmi les effets documentés du *ESDM* par l'entremise de ces études, notons une plus grande alliance thérapeutique entre le parent et l'intervenant (Rogers et al., 2012a) ainsi qu'une stabilité du stress parental dans le groupe recevant le programme d'accompagnement parental du *ESDM* par rapport à une augmentation du stress chez les parents recevant les services usuels (Estes et al., 2014). Il est toutefois important de souligner que ces études contiennent plusieurs limites méthodologiques pouvant expliquer, du moins en partie, les conclusions incertaines quant aux effets du programme d'accompagnement parental du *ESDM*. Premièrement, malgré qu'il soit recommandé d'utiliser l'environnement naturel de la famille comme contexte d'intervention pour soutenir le développement d'habiletés chez la famille (Woods & Brown, 2011), le programme d'accompagnement parental basé sur le *ESDM* était seulement offert dans un milieu clinique. Les interventions en milieux cliniques peuvent

limiter la généralisation, autant pour l'implantation des stratégies par les parents au quotidien que pour le développement d'habiletés de l'enfant dans son milieu de vie naturel. Deuxièmement, les gains modestes peuvent en partie être expliqués par l'absence de suivi après l'intervention dans les essais cliniques randomisés (Estes et al., 2014; Rogers et al., 2012a). En effet, comme le souligne Vismara, Colombi et Rogers (2009), les gains les plus importants observés au niveau de la communication se produisent une fois que les parents maîtrisent les techniques du ESDM. Ainsi, il est possible que les gains développementaux de l'enfant augmentent après l'intervention une fois que les parents ont maîtrisé les stratégies et les implantent au quotidien. Troisièmement, les essais cliniques randomisés n'incluaient pas de mesures de l'interaction parent-enfant alors que la sensibilité des parents aux activités et à l'attention de leur enfant est reconnue comme un facteur prédictif aux habiletés de communication chez les enfants avec un TSA (Adamson et al., 2009; McDuffie & Yoder, 2010; Siller & Sigman, 2002, 2008) et un élément central au programme du *ESDM* (Rogers, 2016). Finalement, les articles de Rogers et collaborateurs (2012) et Estes et collaborateurs (2014) ne décrivent pas les interventions reçues dans le groupe contrôle, ce qui rend difficile l'interprétation des résultats.

Social Communication Emotional Regulation Transactional Support (SCERTS)

Le modèle SCERTS (Prizant et al., 2006) est également un modèle d'intervention de prise en charge globale qui incorpore une vision sociopragmatique à des stratégies d'interventions comportementales. Tout comme le ESDM, le modèle SCERTS vise le développement de l'enfant dans un contexte naturel et via des relations interpersonnelles positives. La particularité du modèle SCERTS est qu'il considère les particularités cognitives et de régulation émotionnelle des enfants avec un TSA comme des difficultés primaires et des cibles d'intervention principales, et ce, en plus des habiletés sociocommunicatives traditionnellement ciblées (Prizant et al., 2003). La régulation émotionnelle est un processus sous-jacent à l'attention et à l'engagement social (Prizant & Meyer, 1993) atteint chez les enfants avec un TSA qui inclue l'autorégulation et la régulation mutuelle. Les difficultés de régulation émotionnelles se caractérisent par un seuil de réactivité qui est soit bas ou élevé et qui se manifeste respectivement par une hyperréactivité ou une hyporéactivité émotionnelle et physiologique (Prizant et al., 2003). Ainsi, la régulation émotionnelle est nécessaire au

développement des habiletés sociocommunicatives et cognitives, car elles permettent à l'enfant d'être attentif et de profiter des opportunités d'apprentissage social. À l'opposé, lorsque l'enfant est en dysrégulation émotionnelle, celui-ci n'est pas disponible aux apprentissages. Il est donc essentiel d'assurer une disponibilité physiologique et émotionnelle de l'enfant afin de développer d'autres habiletés telles que la communication sociale.

À ce moment, une seule étude publiée a utilisé un programme d'accompagnement parental basé sur le modèle SCERTS auprès d'enfants avec un diagnostic de TSA âgé entre 16 et 20 mois (Wetherby et al., 2014). Cet essai clinique randomisé incluant 82 enfants a comparé l'effet du programme d'accompagnement parental intitulé *Early Social Interaction* qui est basé sur le modèle SCERTS en fonction du mode de prestations de services, soit de façon individuelle à la maison ou en groupe de quatre à cinq familles en clinique. Des gains plus importants ont été observés chez le groupe participant au programme d'accompagnement parental de façon individuelle au niveau des habiletés sociocommunicatives, des comportements adaptatifs et du niveau de développement global (Wetherby et al., 2014). Les effets de cette intervention n'ont toutefois pas été comparés aux services usuels ou à d'autres programmes.

Malgré les données probantes peu nombreuses en ce qui a trait au programme d'accompagnement parental basé sur le modèle SCERTS, le développement de ce modèle s'est basé sur les données probantes disponibles à ce moment. Selon les auteurs, la conception du modèle SCERTS autour de trois composantes principales, soit la communication sociale, la régulation émotionnelle et le soutien transactionnel, s'appuie sur 57 études (Prizant et al., 2010). Parmi ces études, quelques études de niveau 1 (étude expérimentale de groupe) démontrent la pertinence et l'efficacité de favoriser le développement des habiletés de communication sociale (Aldred et al., 2004; Drew et al., 2002; McConachie et al., 2005) et de régulation émotionnelle (Escalona et al., 2001). Ces études soutiennent également l'intervention au niveau du contexte social et/ou environnemental pour favoriser le développement des habiletés de l'enfant. L'importance du soutien transactionnel est également démontrée par l'augmentation des interactions positives dans la famille à la suite d'un programme d'accompagnement parental basé sur la réponse pivot (Koegel et al., 1996).

Ainsi, les bases théoriques et conceptuelles du modèle SCERTS sont bien documentées (Prizant et al., 2003).

En conclusion, à la lumière des évidences scientifiques présentées et des besoins cliniques documentés au Québec, il est essentiel d'évaluer les effets d'un programme novateur d'accompagnement parental combinant le modèle ESDM et SCERTS.

CHAPITRE 2. OBJECTIFS, HYPOTHÈSES ET CADRE DE RECHERCHE

2.1 Question et objectifs de recherche

Question de recherche

Quels sont les effets sur la dyade parent-enfant d'un programme d'accompagnement parental de 12 semaines pour des enfants âgés entre 12 et 30 mois avec un diagnostic ou une suspicion de TSA?

En d'autres termes, le but de l'étude était donc d'évaluer les effets d'un programme d'accompagnement parental de 12 semaines pour des enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA en considérant les deux acteurs-clés, soit l'enfant avec une suspicion de TSA et son parent qui agit à titre d'agent de changement.

Objectifs spécifiques

Objectif primaire

1. Évaluer les effets du programme d'accompagnement parental sur l'engagement dyadique entre le jeune enfant à risque de TSA et son parent.

Objectifs secondaires

1. Évaluer les effets du programme d'accompagnement parental sur le bien-être des parents d'enfants de 12 à 30 mois suspectés de TSA, incluant le stress parental et le sentiment d'efficacité parentale.
2. Évaluer les effets du programme d'accompagnement parental sur le développement des jeunes enfants 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA, notamment au niveau des habiletés motrices, des habiletés cognitives et des comportements adaptatifs.

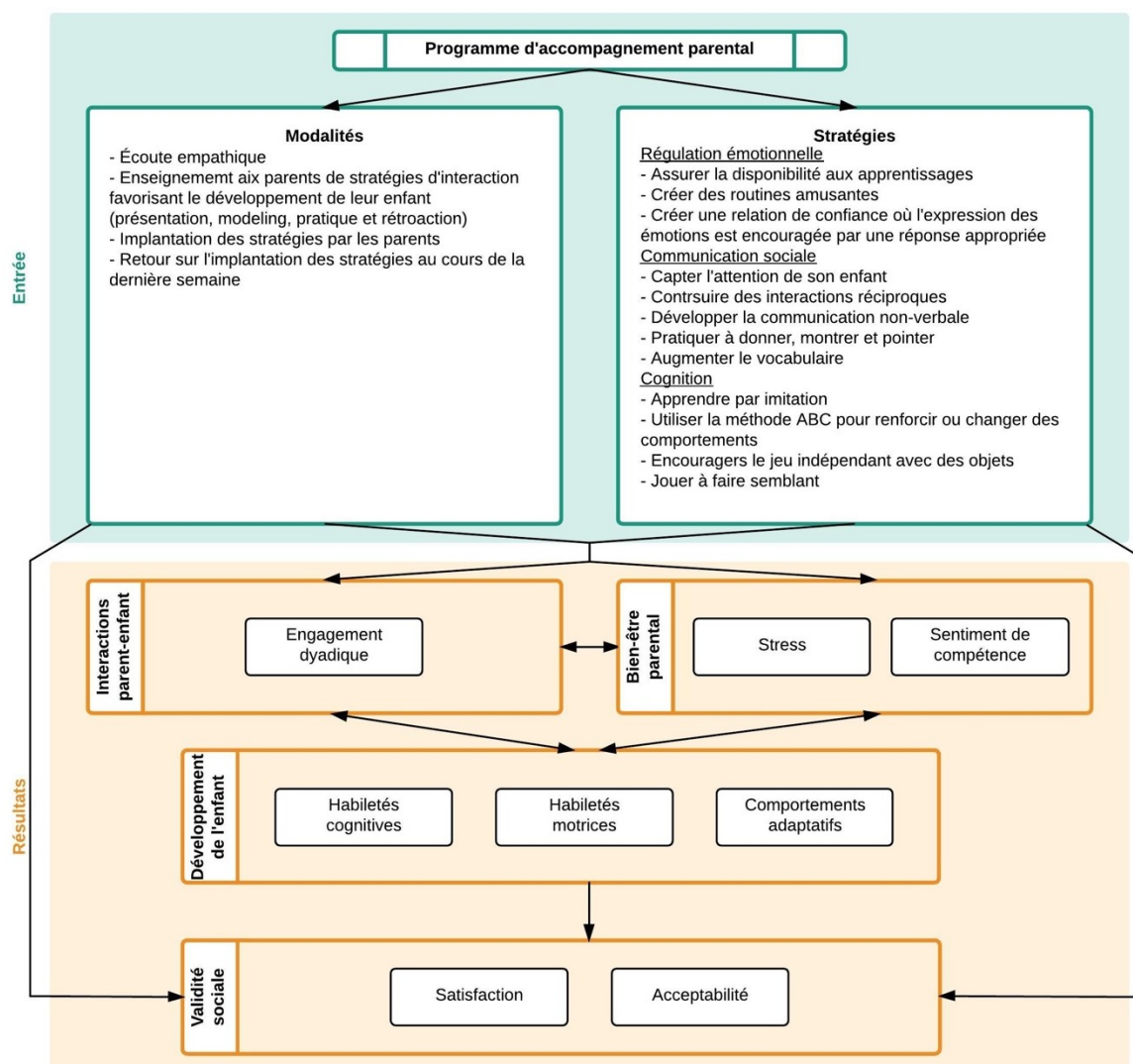
Objectif exploratoire :

1. Explorer la validité sociale du programme d'accompagnement parental exprimée par les parents d'enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA y ayant participé.

2.2 Hypothèse de recherche

Le programme d'accompagnement parental proposé améliorera les interactions entre les jeunes enfants de 12 à 30 mois suspectés de TSA et leurs parents en plus d'améliorer le bien-être parental (c.-à-d. diminution du stress parental et augmentation du sentiment d'efficacité parentale). Tel que représenté à la figure 2, ces améliorations au niveau des interactions parent-enfant et du bien-être parental agiront en interaction avec le développement des habiletés des jeunes enfants avec une suspicion de TSA. Considérant le rôle d'agent de changement des parents, les améliorations observées au niveau des variables de l'enfant seront de moindre envergure que les améliorations notées au niveau des interactions parent-enfant et du bien-être parental. Finalement, l'implantation du programme d'accompagnement parental avec les différentes modalités et stratégies décrites à la figure 2 favorisera également une forte validité sociale exprimée par les parents face à l'intervention. Néanmoins, des améliorations seront sans doute suggérées afin d'améliorer le programme d'accompagnement parental en fonction de l'expérience des familles ayant participé à la présente étude.

Figure 2
Modèle logique du programme d'accompagnement parental



Pour plus de détails, sur l'hypothèse de recherche et le modèle logique du programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse, voir la section 2.3 *Cadre de recherche*. Cette section détaillera les deux cadres théoriques sur lesquelles s'appuient l'hypothèse de recherche et le modèle logique présenté ci-dessus, la méthodologie utilisée et les données probantes duquel les cadres théoriques émergent.

2.3 Cadre de recherche

La présente section a pour but de présenter les deux cadres théoriques qui ont guidé l'ensemble du processus de recherche en lien avec cette thèse, soit 1) le mécanisme d'effets des interventions précoces chez les enfants avec un TSA et 2) le cadre théorique expliquant les effets des interventions d'accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA. Ces deux cadres de recherche sont ancrées dans les évidences scientifiques disponibles au moment de la rédaction et ont émergé au cours d'un processus rigoureux d'analyse critique des écrits scientifiques.

Cette section détaillera la méthode utilisée pour construire les cadres de recherche ainsi que les données théoriques et expérimentales desquelles proviennent les cadres théoriques.

Article 2

Avant-propos

How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model

Auteurs de l'article: BEAUDOIN, Audrée Jeanne, SÉBIRE, Guillaume, & COUTURE, Mélanie

Statut de l'article: soumis : Beaudoin, A.J., Sébire, G., & Couture, M. (soumis). How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model. *Autism Research and Treatment*.

La contribution d'Audrée Jeanne Beaudoin pour le travail en lien avec cet article inclut: la recension des écrits, l'analyse des données, la création du modèle logique, la présentation des données et la rédaction du manuscrit. Les coauteurs (Guillaume Sébire et Mélanie Couture) ont supervisé les différentes étapes, confronté les résultats et suggéré des améliorations au manuscrit.

Les deux coauteurs ont autorisé l'intégration de cet article dans la thèse d'Audrée Jeanne Beaudoin.

Résumé

Problématique: Bien que les interventions précoces intensives soient maintenant reconnues comme une façon efficace de développer les habiletés des enfants d'âge préscolaire avec un TSA et de réduire leurs symptômes autistiques, les nourrissons nécessitent, quant à eux, des interventions qui sont adaptées à leurs capacités d'apprentissage. **Objectif :** Cet article présente une synthèse des interventions sociopragmatiques médiées par les parents pour des nourrissons avec une suspicion ou un diagnostic de TSA. **Méthodes :** Une synthèse critique interprétative des écrits portant sur les interventions médiées par les parents qui ciblent les interactions parent-enfant comme modalité pour influencer le développement de leur jeune enfant a été complétée afin de faire ressortir le mécanisme d'action de ces interventions. Les évidences ont été intégrées dans un cadre théorique émergent de la synthèse critique interprétative qui prend la forme d'un modèle logique décrivant les interventions médiées par les parents qui ciblent les interactions parent-enfant. **Résultats :** Le cadre théorique soutient l'hypothèse que les effets de ces interventions en lien avec le parent (c.-à-d. interactions parent-enfant et bien-être parental) sont des médiateurs des effets sur le développement de l'enfant qui sont donc influencés indirectement par les interventions médiées par les parents. **Conclusions :** Le cadre théorique proposé peut être utilisé comme un outil pour développer des interventions sociopragmatiques médiées par les parents qui répondent spécifiquement aux besoins des nourrissons avec un TSA. Ce cadre peut également être utilisé comme base théorique permettant de construire des protocoles de recherche structurés limitant les biais actuellement importants dans les évidences scientifiques disponibles sur les interventions précoces chez la clientèle TSA.

Abstract

Background: Although typical intensive early interventions have been demonstrated to be an effective way to develop abilities in preschoolers with autism spectrum disorder (ASD) and reduce their autistic symptoms, toddlers require interventions that are tailored to their learning abilities. **Objective:** This article presents a synthesizing argument for social-pragmatic parent-mediated intervention models for toddlers with suspected or diagnosed ASD. **Methods:** A critical interpretive synthesis of the literature on the effects of parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions to influence toddlers' development and their mechanisms of action was conducted. Evidence was integrated into an emerging theoretical framework, representing the logic model of parent-mediated interventions that foster parent-child interactions. **Results:** The theoretical framework supports the idea that parent-mediated outcomes (i.e. parent-child interactions and parental well-being) are mediators of the effects on children's development, which are indirect outcomes of parent-mediated interventions. **Conclusions:** The proposed theoretical framework can be used as a tool to develop different social-pragmatic parent-mediated interventions specifically for toddlers with ASD or to design research protocols that will compensate for limitations in the current scientific literature on early interventions in ASD.

1. Introduction

Knowing that timing (earlier is better than later) and intensity (15-40 hours per week) are important factors for children to progress [1] and that it is now possible to identify a child with ASD in the first two years of life [2], efforts are being made to develop effective interventions for younger children with ASD. According to current best practice guidelines for children under three years of age with suspected or diagnosed ASD, caregivers should be actively involved [3,4]; more specifically: “Parents and caregivers can capitalize on teachable moments as they occur, provide learning opportunities during daily routines, and facilitate the generalization of learned skills across environments” [4].

In the last decade, a growing number of studies have been published on parent-mediated interventions as an innovative way to intervene with infants at risk of or diagnosed with ASD [5]. These interventions are “built on the assumptions that parents would implement the intervention strategies with sufficient intensity to produce changes in child development, and that parents would continue using these strategies after the intervention to ensure enduring intervention effects” [6]. Since typical language development in very young children has been demonstrated to be dependent on the language used by their parents [7], parent-mediated interventions that inform parents on how to interact and communicate with their toddlers with ASD are a promising way to support the learning capacities of toddlers with ASD [8]. Interestingly, many parent-mediated interventions use a naturalistic developmental paradigm, meaning that the therapist coaches parents to enhance their child’s soci communicative behaviors and to respond contingently in a natural context (e.g. play action, social comment, demand for food) [9]. In other words, many parent-mediated social-pragmatic interventions focus on enhancing a responsive parenting interaction style as a way to improve child outcomes [10-13]. Thus, parent-mediated social-pragmatic interventions differ from usual behavioral interventions in two main respects; 1) they consider parents key actors in children’s development and emphasize the importance of daily interactions with their children [12] rather than relying on stimulation of the child by a trained therapist, and 2) they encourage and support parents to enhance their use of responsive interactive strategies during routine interactions [12] rather than imposing a rigid teaching structure for operant conditioning.

Despite the interesting hypothesis that increasing parents' competence and responsiveness to their child's communication efforts will enhance their child's development, many methodological limitations have been reported in the rapidly growing body of literature on parent-mediated interventions for children with ASD, making it difficult to draw conclusions concerning the effects of these interventions. Some of the methodological limitations that have been reported include significant variability in the outcomes measured, the use of measures that are not sensitive enough to detect changes, and limited attention paid to parental well-being as a potential outcome of parent-mediated interventions [5,14,15]. Also, considering the current emphasis on evidence-based interventions, a better understanding of the mechanism of the effects of parent-mediated interventions is needed [16]. Basing the evaluation of parent-mediated intervention on a logic model is a way to test the intervention's chain of action [17]. Thus, a logic model can be used as a framework to understand and assess the effects of the intervention [18] and reduce methodological bias in studies. However, very few ($n = 2$) studies have reported a logic model for parent-mediated interventions targeting very young children with suspected or diagnosed ASD [12,19].

In 1986, Helm and Kozloff [20] reviewed research on parent training for children with a variety of conditions and noted that improvements in the parents' behavior (e.g. self-confidence, knowledge, and teaching skills) are usually followed by beneficial changes in their children's behavior. However, in the absence of a stepwise examination of the mechanisms of change, the authors pointed to unanswered questions such as "When families change, what is the change process like?" and "Is there a typical sequence or set of alternate sequences by which change takes place?" [20].

More recently, Karst and Van Hecke [19] developed an ASD-specific intervention model based on their literature review of the impact of ASD on the family system. Their analysis of the literature found that the difficulties of children with ASD are associated with various and pervasive difficulties for their parents, including low self-efficacy, high parental stress, and increased risks of physical and mental problems. Based on the results of previous studies [21-24], Karst and Van Hecke [19] concluded that, like their peers without any

neurodevelopmental disabilities (typically developing children), a transactional and bidirectional relationship exists between the deficits of children with ASD and parental difficulties. Based on their literature analysis, they proposed an individual intervention model that considers both the direct impact on the child and family as well as the reciprocal effects of changes on the child's and family's functioning. However, no logic model with a hierarchical or chronological organization of intervention outcomes was presented.

In addition, Mahoney and Perales [12] explicitly presented a logic model for their relationship-focused parent-mediated intervention (*Responsive Teaching*) for young children with ASD. Their model suggests that the *Responsive Teaching* intervention “may promote the foundational behaviors that underlie the developmental and social-emotional functioning of children who have ASD by enhancing parents’ responsiveness” [12]. Mahoney and Perales [12] highlighted the importance of analyzing intervention outcomes of the *Responsive Teaching* parent-mediated intervention for toddlers with ASD based on their logic model. The 1-year *Responsive Teaching* intervention resulted in significant improvements in both children's socio-emotional functioning (i.e. children were less detached, had fewer self-regulation problems and were more socially reactive) and mothers' interaction style, and particularly maternal responsiveness (35% increase). Analyses of the intervention effects highlighted the crucial role of mothers' interactions with their children with ASD as a potential mediator for the children's socio-communicative and socio-emotional development [25]. However, Mahoney and Perales' logic model did not consider many possible elements, including parental outcomes (e.g. working alliance, stress, distress, sense of competence, and use of strategies), child engagement in interactions, and social validity of the intervention.

Considering that only two studies in the last 30 years explicitly described an intervention framework for parent-mediated interventions for toddlers with ASD [12,19] and only one of them [12] presented a partial logic model, an important question remains: How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of abilities for toddlers with ASD? This study aimed to develop a theoretical framework to illustrate the mechanism of the effects underlying parent-mediated interventions for toddlers with ASD. Considering the dynamic and iterative process of critical interpretive synthesis,

we did not postulate any hypotheses regarding the mechanism of the effects underlying parent-mediated interventions.

2. Materials and Methods

This article is a critical interpretive synthesis [26]. Critical interpretive synthesis is a configurative (or interpretive) review [26,27], meaning that it aims to interpret and understand literature by interpreting and arranging information in an emerging model [27]. As Gough and colleagues [27] reported, configurative reviews differ from typical aggregative reviews (e.g. systematic review) in their philosophy, where the former “seek concepts to provide enlightenment through new ways of understanding” [27] by using more exploratory methods that may be adapted and selected iteratively as the research progresses. It is also important to note that identifying studies in configurative reviews “have the different purpose of aiming to find sufficient cases to explore patterns and so do not necessarily attempt to be exhaustive in their searches” [27].

Finally, the interpretive aspect of the review necessarily includes a subjective component that is the starting point for additional research, not an end in itself [26,28]. Hence, the research team adopted a reflexive position to ensure that the theory generated was the result of conscientious and thorough searches as well as fair and appropriate selections of materials [26].

2.1 Search procedures

Based on Dixon-Woods and colleagues’ description of their methods for undertaking critical interpretive syntheses of the literature [26], the research team examined papers published up to May 2016 for potentially relevant documents to provide a sampling frame for social-pragmatic parent-mediated interventions and the mechanisms of their effects on five different aspects: 1) ASD etiology, 2) child development, 3) logic models of parent-mediated interventions, 4) effects of parent-mediated interventions, and 5) mediator effects of parent-mediated interventions. As proposed by Dixon-Woods and colleagues [26], the search procedures included many strategies, including searches in four electronic databases

(CINAHL, ERIC, Pubmed/Medline, PsychInfo), reference chaining and identifying relevant literature from related fields within the research team.

As recommended in the Autism Speaks Toddler Treatment Network paper [6], the research team's search focused on studies involving participants within a narrow age window (i.e. children under three years old with diagnosed or suspected ASD) to prevent over-extrapolation based on results from older children with ASD.

2.2 Data extraction and analysis

Available scientific and professional literature was reviewed and analyzed by the first author (A.J.B.) using an inductive approach [29]. Through the iterative process of searching, extracting and analyzing information, two major themes emerged: 1) determinants of early development of toddlers with ASD, and 2) effects of social-pragmatic parent-mediated interventions for toddlers with ASD.

As proposed by Dixon-Woods and colleagues [26], the data analysis was explicitly oriented toward the generation of a new theory. Specifically, the analysis of newly extracted data was constantly compared and integrated into the emerging theoretical framework to illustrate the mechanism of the effects underlying parent-mediated interventions for toddlers with ASD. The second (G.S.) and third (M.C.) authors read, compared, and validated the results, analyses, and interpretations.

3. Results

Results are reported based on the two major themes (and six subcategories) that emerged from the data extraction and analysis, namely:

3.1 Determinants of early development of toddlers with ASD

3.1.1 Early neuroplasticity

3.1.2 Child-environment interaction

3.2 Effects of social-pragmatic parent-mediated interventions for toddlers with ASD

3.2.1 Effects of parent-mediated interventions on parental outcomes

- 3.2.2 Effects of parent-mediated interventions on parent-child interactions
- 3.2.3 Effects of parent-mediated interventions on child outcomes
- 3.2.4 Social validity of parent-mediated interventions

3.1 Determinants of Early Development of Toddlers With ASD

Results are based on two themes related to the early development of toddlers with ASD that emerged from the data extraction and analysis: 1) early neuroplasticity, and 2) child-environment interaction.

3.1.1 Early Neuroplasticity

Although the causes of ASD are not yet well understood, genetic and environmental risks are known to play separate or, more often, combined roles [30]. Currently, genetic causes or risk factors are detected in about 40% of children with ASD. Among environmental determinants, mounting evidence shows that maternal immune activation in response to prenatal viral or bacterial infections plays an important role in the genesis of ASD and its sex dichotomy [31,32]. As a result, gene-environment interactions are increasingly studied. Recent studies have reported that multiple genes might interact with each other and with environmental factors to modulate the expression of genes and thus increase ASD susceptibility [33]. These increasingly reported gene-environment interactions are the basis of transactional and developmental models of ASD that emphasize the interaction between biological and environmental factors in the early development of toddlers [33,34]. For example, the Interactive Specialization Framework [35] suggests that difficulties of children with ASD result from early atypical neuronal development. Symptoms of ASD progressively appear in the early years of life, due to atypical cerebral development, which is partly mediated by interactions between toddlers and their environments [36]. Various clinical studies [34,37-40] support this interaction between infants' brains and their social environment and its impact on the development of infants' social and language brain circuitry.

These interactive biological and environmental processes in very early child development point to early brain plasticity and the role of very early interventions in the prevention of ASD [33,41]. Knowing that neuroplasticity is experience-dependent and that each experience

influences the brain structure and function of young children [41], interventions with toddlers with ASD have the potential to influence toddlers' development toward a more typical developmental trajectory [1,33,35,41]. More specifically, Dawson and colleagues described the typical development of the social brain during infancy with an emphasis on the key role of early parent-child interactions in this development of the social brain [33,37,42].

3.1.2 Child-Environment Interaction

Preclinical studies have shown that a more stimulating environment, called environmental enrichment, can mitigate the effects of genetic and environmental risk factors on autistic brain and behavioral development [43-46]. Building on these results in autistic-like animals, developmental theories increasingly consider parent-child interactions as an important aspect of child development. Two main bio-socio-ecological developmental theories conceptualize children as part of an environmental system that impacts child development [47]: Bronfenbrenner's *Ecological Model of Human Development* [48] and Sameroff's *Transactional Model* [49].

Bronfenbrenner's *Ecological Model of Human Development* [48] highlights the influence of process, person, context and time on human development. More specifically, Bronfenbrenner's *process* concept stresses the importance of proximal processes as the key factor in development. The *person* component acknowledges the role of a person's genetic and biological aspects in their development by changing the context. This *context* part states that children's development is influenced by four different types of environment nested in each other: microsystem (i.e. children's immediate environment such as family, school, peer group, and workplace), mesosystem (i.e. linkages and processes between two microsystems), exosystem (i.e. environment in which events indirectly influence children such as parents' workplace, family social networks and neighborhood-community contexts), and macrosystem (i.e. particular reference of belief systems, bodies of knowledge, material resources, customs, lifestyles, opportunity structures, hazards and life course options associated with a given culture or subculture) [48]. Finally, the *time* component emphasizes the influence of constancy and change on all previous aspects. In other words, Bronfenbrenner's theory stresses the dynamic processes between a person, their environment

and the time that influences their development [50,51]. This theory supports the idea that parent-child interactions (proximal process) directly influence children's development through complex and reciprocal interactions between partners at any given time. Thus, parent-mediated therapies aim to provide an optimal environment (microsystem: parent-child interactions) to stimulate children's development.

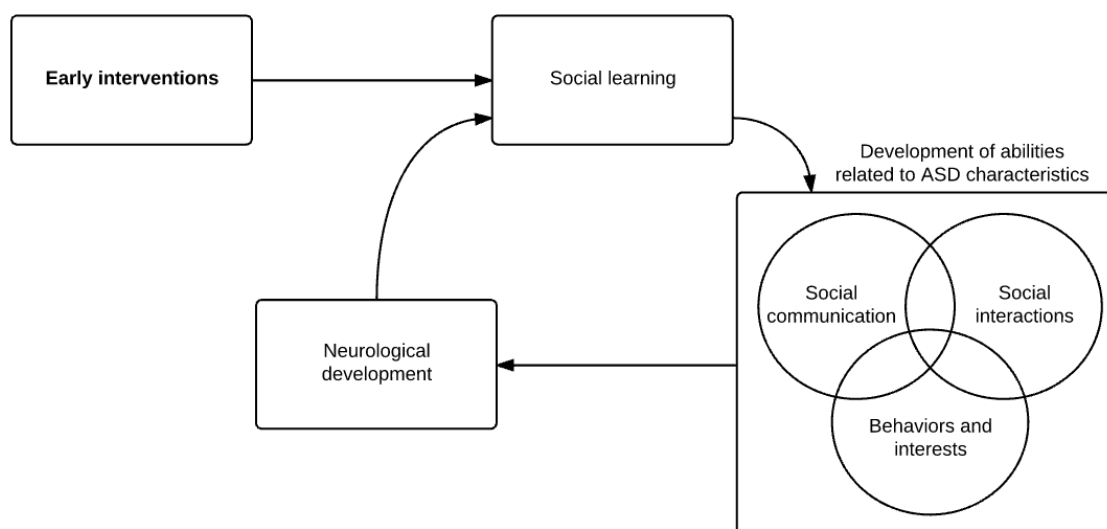
Sameroff's *Transactional Model* [49] also highlights the importance of dynamic interactions between children and their social context; both proximal (or direct) and distal (or indirect) influences are considered. Specifically, Sameroff's model focuses on the interaction between innate and acquired abilities. According to Sameroff's *Transactional Model* of child development, human development results not only from the person's experiences or innate characteristics but also because of the combined effects of the child's experiences and intrinsic characteristics [52]. In other words, this model stresses the mutual interaction between the active environment and the active child, both adapting to and influencing each other. Considering that parent-child interactions are considered the most proximal influence for the child, this theory suggests that parents and child influence each other over time. For example, Crockenberg [53] highlighted the role played by the child "in eliciting particular patterns of interactions or in determining the effect of certain mother behaviors on subsequent development" [53], particularly in the development of infant-mother attachment relationships in the first year of life [54]. Thus, parent-child interactions are a crucial context to consider for enhancing child development.

More recently, Belsky and colleagues [55] presented a different explanation for the greater negative effects that adverse environments have on vulnerable children (non-ASD specific) compared to typical children. In their recent theory of differential susceptibility, they argued that parenting effects might not apply equally to all. For example, some children's temperament or some other individual characteristics may influence the direction and effect size of parenting on the child. More interestingly, the differential susceptibility theory indicates that children at risk (e.g. with emerging ASD) might be more very sensitive and susceptible to the effects of the environment "for better *and* for worse" [55]. In other words, these children have "heightened susceptibility to the negative effects of risky environments

and to the beneficial effects of supportive environments” [55]. This theory sheds new light on child development and suggests caution in making assumptions about how parenting is related to child outcomes, particularly for at-risk children [56]. The differential effects of parenting style on infants at high and low risk for ASD reported in a recent study by Harker and colleagues [57] supports this theory; they maintain that “each parenting style appears to make a unique contribution to the development of social engagement in infants at high- and low-risk for ASD” [57].

To sum up this section on the early development of toddlers with ASD, Figure 1 represents the mechanisms of the effects of early interventions within the child’s environment. Taken together, these concepts of gene-environment interactions, brain plasticity, early interventions, and children’s development in their environment offer a new intervention paradigm to reverse the negative cycle of ASD etiology. Their representation of early intervention mechanisms (Figure 1) highlights the crucial role of the social environment [48], particularly of parents of toddlers with ASD, in stimulating and developing toddlers’ abilities that result in neural development [35]. Through the loop process, this representation illustrates the bidirectional influence of children and parents [49] and highlights particular characteristics of toddlers with suspected or diagnosed ASD that underly their differential susceptibility to early interventions [55].

Figure 1
Representation of the mechanisms of the effects of early interventions for children with ASD



3.2 Effects of social-pragmatic parent-mediated interventions for toddlers with ASD

Considering the caution raised in Belsky and colleagues' theory [55], searches and data analyses in professional and scientific documents mostly focused on parent-mediated interventions for toddlers with ASD, limiting the use of data from older children or toddlers with other developmental disabilities. Thus, the research team reduced the scope of the search, and also prevented over-extrapolation from the study with children and families that might have different susceptibilities (e.g. preschoolers between 3 to 5 years of age differ in their abilities and needs, their access to community services, and their parents' perspective, knowledge, and priorities) and thus different responses to parent-mediated interventions [6,56].

3.2.1 Effects of Parent-Mediated Interventions on Parental Outcomes

Previous studies evaluating the effects of a parent-mediated intervention for toddlers with ASD reported higher levels of therapeutic alliance between caregiver and therapist after a parent-mediated intervention compared to the usual community treatment [58]. Although very few studies reported effects on a therapeutic alliance, it is interesting to note that a higher level of parent-therapist alliance tends to be related to greater engagement in the intervention [59], and thus potentially mediates the use of strategies by parents.

Also, many studies on parent-mediated interventions for toddlers with ASD reported the feasibility for parents of integrating strategies in their daily life that they were taught during parent-mediated interventions [11,16,60-65]. Generally, parents were able to implement newly learned strategies [14], with mixed results in only one case study [66], in which one of the three participants “showed difficulty with conceptual understanding of turn-taking and joint attention, resulting in less adherence to the appropriate phase of intervention”. Interestingly, one case study [64] reported gains in child communications simultaneously with improvements in parents’ use of the strategy, indicating a potential mediating effect of parents’ use of strategies in parent-mediated interventions.

With respect to parental well-being, current studies on parent-mediated interventions for toddlers with ASD reported mixed results. Some researchers suggest that parent-mediated interventions might help to decrease parental stress [60,67,68] while other data indicate no significant change in stress outcomes [69]. Estes and colleagues did not find any significant change in parents’ sense of competence after a 3-month parent-mediated intervention [60] whereas Shertz and colleagues reported that parents had greater self-confidence in their ability to support child interactions [70]. Also, systematic reviews [5,14] pointed to significant methodological biases and the lack of a study specifically assessing parental well-being, which prevents us from drawing any firm conclusions concerning the impact on parental outcomes of parent-mediated interventions for toddlers with ASD. According to Siller and colleagues, some of these inconsistent results may reflect the evolving and dynamic nature of parental well-being surrounding the diagnosis period: “the early months after a child’s diagnosis are usually a time when the parents’ knowledge, thoughts, and emotions evolve rapidly” [6]. Thus, it might be difficult to isolate the effects of interventions for families of toddlers with suspected or diagnosed ASD. Although parent-mediated interventions might be helpful in giving parents the tools they need to understand, interact and stimulate their child in the context surrounding the evaluation and diagnosis (uncertainty, confusion, etc.) [71] and the waitlist for early intervention, it may still be very stressful for parents.

Other researchers hypothesize that parental stress is part of a negative cycle that subsequently influences the development of children with ASD [72,73]. In fact, parental stress could limit, or even eliminate, the positive effects of early therapist-based interventions for toddlers with ASD. Although no studies were found regarding the potential mediating impact of parent well-being on the effects of parent-mediated interventions for toddlers with ASD, one study examined the association between child development and parent well-being. Robbins and colleagues [74] emphasized the association between lower parent-related stress and improved child progress. In short, the few studies that examined the potential mediating effects of parental well-being highlighted the importance of considering parental well-being as a crucial outcome of parent-mediated interventions [67], especially since these interventions are based on the active role of parents.

3.2.2 Effects of Parent-Mediated Interventions on **Parent-Child Interactions**

Parent-child interaction is the outcome for which reported results are the most significant. Parent-mediated interventions are linked to positive changes in parent-child interactions [5,14], which include an increase in parental sensitivity [12,25,75,76] and more positive affect during interactions with their child [12,25]. Qualitative information revealed that parent-mediated interventions increased parents' awareness of both interactions with their infant and their child's communication with parents [76].

Results from Mahoney and Perales' [25] study on a relationship-focused parent-mediated intervention (*Responsive Teaching*) for young children with ASD highlighted the crucial role of maternal responsiveness as a more proximal (direct) outcome for children's socio-communicative and socio-emotional development. In their study [25], changes in maternal responsiveness accounted for 25% of the variance in children's socio-interactive improvements measured with the *Child Behavior Rating Scale* (CBRS) [77]. The authors also reported that "children made little to no change on these social-emotional measures when their mothers made minimal changes in responsiveness, they made moderate improvements when mothers made moderate changes in responsiveness, and they made the highest levels of improvement when mothers made substantial changes in responsiveness" [12].

Based on Mahoney and Perales' model [12], parent-child interactions were also analyzed as a potential mediating outcome for parent-mediation on distal (indirect) outcomes such as child developmental outcomes. Similar to results reported for parental well-being, a few studies reported mediating effects of parent-child interactions for parent-mediated interventions. However, emerging results seem to confirm the hypothesis that parent-child interactions might mediate child development in parent-mediated interventions. For example, child engagement in parent-child interactions has been correlated with increased communication abilities [65] and children's overall development [25]. Similarly, parent engagement in parent-child interactions was associated with improvements in children's social behavior [12] and gains in social-emotional functioning [12,78], but not with the development of communication skills [79]. Furthermore, in systematic reviews a greater magnitude of change was also reported for parent-child interactions compared to changes in child developmental abilities after parent-mediated interventions [5].

Also, when analyzing transversal and longitudinal studies on toddlers with ASD, the research team found some additional correlations between parent-child interactions and child development, including the association between parent engagement in parent-child interactions with communication skills [80,81] and social behaviors [57,81,82] of toddlers with ASD. Also, child engagement in parent-child interactions is related to children's social behaviors [83].

3.2.3 Effects of Parent-Mediated Interventions on **Child Outcomes**

Considering that children with ASD have, by definition, significant social communication impairments [84], improving social and communication skills is a critical target for early interventions [16], including parent-mediated interventions. Although child development variables are the outcomes of parent-mediated intervention for toddlers with ASD that have been studied the most, results vary widely [14]. Nevertheless, in their systematic review, McConachie and Diggle [85] concluded that parent-mediated interventions for children with ASD have moderate potential to increase children's abilities. For example, gains have been reported in communication skills [62,63,70,86], and social behaviors [68]. However, other

studies reported little [12,25,69,76] or no change [58,75,87] in social-emotional and social communication outcomes. In addition, no significant impact has been reported on symptom severity [58,69,76] or intellectual quotient [69].

With respect to the emerging theoretical framework, the development of communication abilities and social skills has been related to reducing problematic behaviors [66]. Moreover, child development is the outcome least influenced, based on magnitude of change, by parent-mediated interventions [88]. This may indicate that it is a distal outcome that might need time before parent-mediated interventions have a positive impact on children's development [14]. According to Schertz and Odom [66], "all parents predicted better long-term child competence as a result of the intervention".

However, as highlighted by Karst and Van Hecke [19] and theories of child development (see section 3.1 "Determination of early development of toddlers with ASD"), child development and parent well-being have bidirectional effects. Thus, toddlers' development [74] is associated with parental well-being. More specifically, children's social behavior [89], social-emotional functioning [67], and behavior problems [90] are all associated with parental stress while parental distress is also associated with the presence of problematic behaviors [90].

3.2.4 Social Validity of Parent-Mediated Interventions

Finally, a few authors reported that parent-mediated interventions had high social validity. Specifically, studies reported high acceptability of either face-to-face [70,76] or telehealth [65] parent-mediated interventions. Additional data revealed parents' high degree of acceptability for all aspects of parent-mediated interventions, including goals, activities, and outcomes [66,70]. For example, Schertz and Odom reported that all parents supported "the importance and appropriateness of intervention goals, their role in implementations, their participation in weekly sessions, activity suggestions, and level of intrusiveness" [66].

Satisfaction with parent-mediated interventions may also be seen as partly due to parents' perception of their child's general improvement during the intervention [62,66] but not to any particular aspects of child development.

To sum up, theoretical and evidence-based data were integrated into the emerging theoretical framework (Figure 2) represented as a logic model for social-pragmatic parent-mediated interventions for toddlers with suspected or diagnosed ASD. This theoretical framework highlights: 1) the use of social learning to influence brain structure and function of toddlers with ASD [41], 2) the potential mediating effects of parental outcomes [72], 3) the pivotal role of parent-child interactions in distal outcomes of parent-mediated interventions [12], and 4) the bidirectional and dynamic effects of child and parental outcomes on each other [19].

Discussion

Even though parent-mediated interventions are increasingly used in research and clinical contexts, this paper is one of the first to describe the mechanisms of the effects of parent-mediated interventions for toddlers with ASD. It shows that parent-mediated proximal outcomes (i.e. parent-child interactions and parental well-being) are potential mediators of the effects on children's development, which are distal outcomes of parent-mediated interventions. The logic model highlights the determining role of parental well-being and parent-child interactions in the mechanisms of parent-mediated interventions for toddlers with suspected or diagnosed ASD. Knowing this, social-pragmatic parent-mediated interventions need to specifically target and enhance parent-child interactions and parental well-being in order to produce a secondary increase in children's abilities.

To our knowledge, the logic model presented in this paper is the first to explicitly emphasize the importance of parental well-being and parent-child interactions in parent-mediated interventions. As mediators of subsequent improvements in children's development, parent-related outcomes should become the focus of attention of researchers and clinicians using a parent-mediated approach. In fact, more research needs to be done on assessing the impact of parent-mediated interventions on parental well-being and family functioning in addition to facilitating the development of children with ASD [14,91,92]. Furthermore, according to Stahmer and Pellechia [92], "we may need to move away from seeing parent-implemented intervention as replacing more intensive treatment delivered by trained professionals and toward examining the role of parent-implemented strategies in improving family functioning and stress, in addition to facilitating child development" [92].

In their systematic review, McConachie and colleagues [91] advocated for more use of measurement tools to assess parent-child interactions and use of the strategies taught. Unfortunately, these measures are not always collected and rarely relate to outcomes [91], which limits the possibility of evaluating the potential mediating effects of parental outcomes and parent-child interactions. Because of these limitations in the existing literature, a causal relationship could not be established between different outcomes of the framework presented in this paper. Thus, it is important to view the directionality of relationships (arrows in the

logic model) with caution since it was illustrated in the model based on theories rather than experimental evidence. Nevertheless, these relationships are supported in the literature on older children with ASD. For example, concerning parental well-being, Jellet and colleagues emphasized the importance of providing clinical interventions and support to strengthen parent mental health and family functioning, especially when behavior problems overburden parents [93]. With respect to parent-child interactions, preschool-aged children's rate of language growth has been independently predicted by children's responsiveness to others' bids for joint attention and parents' responsiveness to their children's attention and activity during play [94].

Conclusion

In conclusion, the theoretical framework presented in this article emphasizes the mediator effects of parental and parent-child outcomes that should be the primary outcomes of future studies on parent-mediated effects for children with ASD. Since this theoretical framework is the starting point for additional research rather than an end in itself [26,28], the logic model can be used as a tool to develop effective parent-mediated interventions targeting parent-child interactions, parental well-being, and parental competence that are potential mediators to enhance children's development. The framework presented in this paper can also be used to design research protocols that will compensate for limitations in the current scientific literature on early interventions in ASD.

Disclosure Policy

The author(s) declare(s) that there is no conflict of interest regarding the publication of this paper.

References

1. Dawson G, Jones EJJ, Merkle K, Venema K, Lowy R, Faja S, et al. Early Behavioral Intervention Is Associated With Normalized Brain Activity in Young Children With Autism. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*. 2012;51(11):1150–9.
2. Zwaigenbaum L. The Screening Tool for Autism in Two Year Olds can identify children at risk of autism. *Evidence Based Mental Health*. 2005;8(3):69–69.
3. National Research Council (U.S.), Committee on Educational Interventions for Children with Autism. *Educating children with autism*. Washington, DC: National Academy Press; 2001.
4. Zwaigenbaum L, Bauman ML, Choueiri R, Kasari C, Carter A, Granpeesheh D, et al. Early Intervention for Children With Autism Spectrum Disorder Under 3 Years of Age: Recommendations for Practice and Research. *Pediatrics*. 2015;136 Suppl 1(Supplement):S60–81.
5. Oono IP, Honey EJ, McConachie H. Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorders (ASD). In: The Cochrane Collaboration, editor. *Cochrane Database of Systematic Reviews*. Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd; 2013.
6. Siller M, Morgan L, Turner-Brown L, Baggett KM, Baranek GT, Brian J, et al. Designing Studies to Evaluate Parent-Mediated Interventions for Toddlers With Autism Spectrum Disorder. *Journal of Early Intervention*. 2013;35(4):355–377.
7. Carpenter M, Nagell K, Tomasello M, Butterworth G, Moore C. Social Cognition, Joint Attention, and Communicative Competence from 9 to 15 Months of Age. *Monographs of the Society for Research in Child Development*. 1998;63(4):i – 174.
8. Rogers S, Wallace K. Intervention for infants and toddlers with autism spectrum disorders. *Autism Spectrum Disorders*. 2011;1081–94.
9. Shire SY, Gulsrud A, Kasari C. Increasing Responsive Parent–Child Interactions and Joint Engagement: Comparing the Influence of Parent-Mediated Intervention and Parent Psychoeducation. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2016 May;46(5):1737–47.

10. Green J, Charman T, Pickles A, Wan MW, Elsabbagh M, Slonims V, et al. Parent-mediated intervention versus no intervention for infants at high risk of autism: a parallel, single-blind, randomised trial. *The Lancet Psychiatry*. 2015 Feb;2(2):133–40.
11. Kasari C, Gulsrud AC, Wong C, Kwon S, Locke J. Randomized Controlled Caregiver Mediated Joint Engagement Intervention for Toddlers with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010;40(9):1045–56.
12. Mahoney G, Perales F. Using Relationship-Focused Intervention to Enhance the Social Emotional Functioning of Young Children with Autism Spectrum Disorders. *Topics in Early Childhood Special Education*. 2003;23(2):74–86.
13. Rogers SJ, Dawson G. Early start Denver model for young children with autism: Promoting language, learning, and engagement. New York, NY: Guilford Press; 2010.
14. Beaudoin AJ, Sébire G, Couture M. Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Autism Research and Treatment*. 2014;2014:1–15.
15. Siller M, Swanson M, Gerber A, Hutman T, Sigman M. A Parent-Mediated Intervention That Targets Responsive Parental Behaviors Increases Attachment Behaviors in Children with ASD: Results from a Randomized Clinical Trial. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2014 Jul;44(7):1720–32.
16. Gulsrud AC, Hellemann G, Shire S, Kasari C. Isolating active ingredients in a parent-mediated social communication intervention for toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2016 May;57(5):606–13.
17. Brousselle A, Champagne F. Program theory evaluation: Logic analysis. *Evaluation and Program Planning*. 2011;34(1):6978.
18. Rossi PH, Lipsey MW, Freeman HE. *Evaluation: A systematic approach*. Sage Publications; 2003.
19. Karst JS, Van Hecke AV. Parent and family impact of autism spectrum disorders: a review and proposed model for intervention evaluation. *Clinical Child and Family Psychology Review*. 2012;15(3):247–77.
20. Helm DT, Kozloff MA. Research on parent training: Shortcomings and remedies. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 1986;16(1):1–22.

21. Baker BL, McIntyre LL, Blacher J, Crnic K, Edelbrock C, Low C. Pre-school children with and without developmental delay: behaviour problems and parenting stress over time. *Journal of Intellectual Disability Research*. 2003;47(4-5):217–30.
22. Lecavalier L, Leone S, Wiltz J. The impact of behaviour problems on caregiver stress in young people with autism spectrum disorders. *Journal of Intellectual Disability Research*. 2006;50(3):172–83.
23. Osborne LA, McHugh L, Saunders J, Reed P. Parenting Stress Reduces the Effectiveness of Early Teaching Interventions for Autistic Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2008 Jul;38(6):1092–103.
24. Singer GH, Floyd F. Meta-analysis of comparative studies of depression in mothers of children with and without developmental disabilities. *American Journal on Mental Retardation*. 2006;111(3):155–69.
25. Mahoney G, Perales F. Relationship-Focused Early Intervention With Children With Pervasive Developmental Disorders and Other Disabilities: A Comparative Study. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*. 2005;26(2):77.
26. Dixon-Woods M, Cavers D, Agarwal S, Annandale E, Arthur A, Harvey J, et al. Conducting a critical interpretive synthesis of the literature on access to healthcare by vulnerable groups. *BMC Medical Research Methodology*. 2006;6(1):35.
27. Gough D, Oliver S, Thomas J. *An introduction to systematic reviews*. Sage; 2012.
28. Grant MJ, Booth A. A typology of reviews: an analysis of 14 review types and associated methodologies. *Health Information & Libraries Journal*. 2009;26(2):91–9108.
29. Barnett-Page E, Thomas J. Methods for the synthesis of qualitative research: a critical review. *BMC Medical Research Methodology*. 2009 Dec ;9(1).
30. Newschaffer CJ, Croen LA, Daniels J, Giarelli E, Grether JK, Levy SE, et al. The Epidemiology of Autism Spectrum Disorders. *Public Health*. 2007;28(1):235–58.
31. Allard M-J, Bergeron JD, Baharnoori M, Srivastava LK, Fortier L-C, Poyart C, et al. A sexually dichotomous, autistic-like phenotype is induced by Group B Streptococcus maternofetal immune activation. *Autism Research*. 2016.
32. Boksa P. Effects of prenatal infection on brain development and behavior: a review of findings from animal models. *Brain, Behavior, and Immunity*. 2010;24(6):881–97.

33. Dawson G. Early behavioral intervention, brain plasticity, and the prevention of autism spectrum disorder. *Development and Psychopathology*. 2008;20(03).
34. Elsabbagh M, Johnson MH. Getting answers from babies about autism. *Trends in Cognitive Sciences*. 2010 Feb;14(2):81–7.
35. Johnson MH. Functional Brain Development in Infants: Elements of an Interactive Specialization Framework. *Child Development*. 2000;71(1):75–81.
36. Elsabbagh M, Holmboe K, Gliga T, Mercure E, Hudry K, Charman T, et al. Social and attention factors during infancy and the later emergence of autism characteristics. *Progress in Brain Research*. 2011;189:195–207.
37. Dawson G, Carver L, Meltzoff AN, Panagiotides H, McPartland J, Webb SJ. Neural correlates of face and object recognition in young children with autism spectrum disorder, developmental delay, and typical development. *Child Development*. 2002;73(3):700–17.
38. Grelotti DJ, Gauthier I, Schultz RT. Social interest and the development of cortical face specialization: What autism teaches us about face processing. *Developmental Psychobiology*. 2002;40(3):213–25.
39. Kuhl PK. Is speech learning “gated” by the social brain? *Developmental Science*. 2007;10(1):110–20.
40. Kuhl PK, Coffey-Corina S, Padden D, Dawson G. Links between social and linguistic processing of speech in preschool children with autism: behavioral and electrophysiological measures. *Developmental Science*. 2005;8(1):F1–FF12.
41. Losardo A, McCullough, KC, Lakey ER. Neuroplasticity and Young Children with Autism: A Tutorial. *Anatomy & Physiology: Current Research*. 2016; 6:209.
42. Dawson G, Webb S, Wijn E, Schellenberg G, Estes A, Munson J, et al. Neurocognitive and electrophysiological evidence of altered face processing in parents of children with autism: Implications for a model of abnormal development of social brain circuitry in autism. *Development and Psychopathology*. 2005;17(3):679–97.
43. Powell SB, Newman HA, McDonald TA, Bugenhagen P, Lewis MH. Development of spontaneous stereotyped behavior in deer mice: Effects of early and late exposure to a more complex environment. *Developmental Psychobiology*. 2000;37(2):100–8.

44. Schwenck C, Schneider W, Reichert A. Universal parent training as a supplement to inpatient psychiatric treatment for children and adolescents. *European Child & Adolescent Psychiatry*. 2016 Aug;25(8):879–89.
45. Turner CA, Lewis MH, King MA. Environmental enrichment: Effects on stereotyped behavior and dendritic morphology. *Developmental Psychobiology*. 2003;43(1):20–7.
46. Turner CA, Yang MC, Lewis MH. Environmental enrichment: effects on stereotyped behavior and regional neuronal metabolic activity. *Brain Research*. 2002;938(1-2):15–21.
47. Rosenblum KL, Dayton CJ, Muzik M. Infant social and emotional development: Emerging Competence in a Relational Context. *Handbook of Infant Mental Health*, 3rd Ed. New York, NY: Guilford Press;2009;80–103.
48. Bronfenbrenner U. Ecological models of human development. *Readings on the development of children*. New York, NY: Freeman;1994;2:37–43.
49. Sameroff AJ. *Models of development and developmental risk*. 1993.
50. Absil G, Vandoorne C, Demarteau M, Bronfenbrenner U. *Écologie du développement humain. Réflexion et action pour la promotion de la santé*. 2012.
51. Bronfenbrenner U. *Making human beings human: Bioecological perspectives on human development*. Sage; 2005.
52. Sameroff AJ, Fiese BH. Transactional regulation: The developmental ecology of early intervention. *Handbook of Early Childhood Intervention*. Cambridge University Press; 2000;2:135–59.
53. Crockenberg SB. Infant irritability, mother responsiveness, and social support influences on the security of infant-mother attachment. *Child Development*. 1981;857–65.
54. Sameroff AJ, Mackenzie MJ. Research strategies for capturing transactional models of development: The limits of the possible. *Development and Psychopathology*. 2003 Sep;15(03).
55. Belsky J, Bakermans-Kranenburg MJ, Van IJzendoorn MH. For better and for worse: Differential susceptibility to environmental influences. *Current Directions in Psychological Science*. 2007;16(6):300–4.

56. Baker JK, Messinger DS, Lyons KK, Grantz CJ. A pilot study of maternal sensitivity in the context of emergent autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010;40(8):988–99.
57. Harker CM, Ibañez LV, Nguyen TP, Messinger DS, Stone WL. The Effect of Parenting Style on Social Smiling in Infants at High and Low Risk for ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2016 Jul;46(7):2399–407.
58. Rogers SJ, Estes A, Lord C, Vismara L, Winter J, Fitzpatrick A, et al. Effects of a brief Early Start Denver Model (ESDM)-based parent intervention on toddlers at risk for autism spectrum disorders: a randomized controlled trial. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*. 2012;51(10):1052–65.
59. Brookman-Frazee L, Koegel RL. Using parent/clinician partnerships in parent education programs for children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*. 2004;6(4):195-213.
60. Estes A, Vismara L, Mercado C, Fitzpatrick A, Elder L, Greenson J, et al. The Impact of Parent-Delivered Intervention on Parents of Very Young Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2014 Feb;44(2):353–65.
61. Nefdt N, Koegel R, Singer G, Gerber M. The Use of a Self-Directed Learning Program to Provide Introductory Training in Pivotal Response Treatment to Parents of Children With Autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*. 2010 Jan 1;12(1):23–32.
62. Rocha ML, Schreibman L, Stahmer AC. Effectiveness of Training Parents to Teach Joint Attention in Children With Autism. *Journal of Early Intervention*. 2007;29(2):154–72.
63. Steiner AM, Gengoux GW, Klin A, Chawarska K. Pivotal Response Treatment for Infants At-Risk for Autism Spectrum Disorders: A Pilot Study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2013 Jan;43(1):91–102.
64. Vismara LA, Colombi C, Rogers SJ. Can one hour per week of therapy lead to lasting changes in young children with autism? *Autism*. 2009;13(1):93–9115.
65. Vismara LA, Young GS, Rogers SJ. Telehealth for Expanding the Reach of Early Autism Training to Parents. *Autism Research and Treatment*. 2012;2012:1–12.
66. Schertz HH, Odom SL. Promoting Joint Attention in Toddlers with Autism: A Parent-Mediated Developmental Model. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2007 Aug 12;37(8):1562–75.

67. Baker-Ericzén MJ, Brookman-Frazee L, Stahmer A. Stress levels and adaptability in parents of toddlers with and without autism spectrum disorders. *Research and Practice for Persons with Severe Disabilities*. 2005;30(4):194–204.
68. Wong VCN, Kwan QK. Randomized Controlled Trial for Early Intervention for Autism: A Pilot Study of the Autism 1-2-3 Project. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010 Jun;40(6):677–88.
69. Drew A, Baird G, Baron-Cohen S, Cox A, Slonims V, Wheelwright S, et al. A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*. 2002;11(6):266–72.
70. Schertz HH, Odom SL, Baggett KM, Sideris JH. Effects of Joint Attention Mediated Learning for toddlers with autism spectrum disorders: An initial randomized controlled study. *Early Childhood Research Quarterly*. 2013 Apr;28(2):249–58.
71. Midence K, O'Neill M. The Experience of Parents in the Diagnosis of Autism: A Pilot Study. *Autism*. 1999;3(3):273–85.
72. Hastings RP, Brown T. Behavior Problems of Children With Autism, Parental Self-Efficacy, and Mental Health. *American Journal of Mental Retardation*. 2002;107(3):222–32.
73. Sofronoff K, Farbotko M. The effectiveness of parent management training to increase self-efficacy in parents of children with Asperger syndrome. *Autism*. 2002;6(3):271–86.
74. Robbins FR, Dunlap G, Plenis AJ. Family Characteristics, Family Training, and the Progress of Young Children with Autism. *Journal of Early Intervention*. 1991 Jan 1;15(2):173–84.
75. Carter AS, Messinger DS, Stone WL, Celimli S, Nahmias AS, Yoder P. A randomized controlled trial of Hanen's "More Than Words" in toddlers with early autism symptoms. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2011;52(7):741–52.
76. Green J, Wan MW, Guiraud J, Holsgrove S, McNally J, Slonims V, et al. Intervention for Infants at Risk of Developing Autism: A Case Series. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2013;43(11):2502–14.

77. Mahoney G, Wheeden CA. The Effects of Teacher Style on the Interactive Engagement of Preschool-Aged Children with Disabilities. *Journal of Developmental and Learning Disorders*. 1998;2:293–315.
78. Gulsrud AC, Jahromi LB, Kasari C. The Co-Regulation of Emotions Between Mothers and their Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010;40(2):227–37.
79. Kasari C, Siller M, Huynh LN, Shih W, Swanson M, Hellemann GS, et al. Randomized controlled trial of parental responsiveness intervention for toddlers at high risk for autism. *Infant Behavior and Development*. 2014 Nov;37(4):711–21.
80. Haebig E, McDuffie A, Weismer SE. Brief Report: Parent Verbal Responsiveness and Language Development in Toddlers on the Autism Spectrum. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2013;43(9):2218–27.
81. Venker CE, McDuffie A, Ellis Weismer S, Abbeduto L. Increasing verbal responsiveness in parents of children with autism: a pilot study. *Autism*. 2012 Nov 1;16(6):568–85.
82. Ruble L, McDuffie A, King AS, Lorenz D. Caregiver responsiveness and social interaction behaviors of young children with autism. *Topics in Early Childhood Special Education*. 2008;28(3):158-70.
83. Patterson SY, Elder L, Gulsrud A, Kasari C. The association between parental interaction style and children's joint engagement in families with toddlers with autism. *Autism*. 2014 Jul 1;18(5):511–8.
84. American Psychiatric Association. *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders*. 5th Edition. Washington, DC: APA; 2013.
85. McConachie H, Diggle T. Parent implemented early intervention for young children with autism spectrum disorder: a systematic review. *Journal of Evaluation in Clinical Practice*. 2007;13(1):120–9.
86. Wetherby AM, Woods JJ. Early Social Interaction Project for Children With Autism Spectrum Disorders Beginning in the Second Year of Life: A Preliminary Study. *Topics in Early Childhood Special Education*. 2006;26(2):67–82.

87. Oosterling I, Visser J, Swinkels S, Rommelse N, Donders R, Woudenberg T, et al. Randomized Controlled Trial of the Focus Parent Training for Toddlers with Autism: 1-Year Outcome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010;40(12):1447–58.
88. Kaminski JW, Valle LA, Filene JH, Boyle CL. A Meta-analytic Review of Components Associated with Parent Training Program Effectiveness. *Journal of Abnormal Child Psychology*. 2008;36(4):567–89.
89. Davis NO, Carter AS. Parenting Stress in Mothers and Fathers of Toddlers with Autism Spectrum Disorders: Associations with Child Characteristics. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2008;38(7):1278–91.
90. Estes A, Olson E, Sullivan K, Greenson J, Winter J, Dawson G, Munson J. Parenting-related stress and psychological distress in mothers of toddlers with autism spectrum disorders. *Brain and Development*. 2013;35(2):133–138.
91. McConachie H, Fletcher-Watson S, Working Group 4, COST Action “Enhancing the Scientific Study of Early Autism.” Building capacity for rigorous controlled trials in autism: the importance of measuring treatment adherence: Treatment adherence in autism intervention trials. *Child: Care, Health and Development*. 2015 Mar;41(2):169–77.
92. Stahmer AC, Pellecchia M. Moving towards a more ecologically valid model of parent-implemented interventions in autism. *Autism*. 2015;19(3):259–61.
93. Jellett R, Wood CE, Giallo R, Seymour M. Family functioning and behaviour problems in children with Autism Spectrum Disorders: The mediating role of parent mental health: Family functioning and autism spectrum disorders. *Clinical Psychologist*. 2015 Mar;19(1):39–48.
94. Siller M, Sigman M. Modeling longitudinal change in the language abilities of children with autism: Parent behaviors and child characteristics as predictors of change. *Developmental Psychology*. 2008;44(6):1691.

CHAPITRE 3. MÉTHODOLOGIE

3.1 Devis de recherche

Cette étude mise sur un devis mixte de type séquentiel explicatif (Creswell, 2013). Les devis de recherche mixtes s'appuient sur une vision pragmatique « de recherche dans lequel on incorpore au sein d'une même étude [...] des composantes des méthodes quantitatives et qualitatives » (Briand & Larivière, 2014) à des fins de triangulation des résultats de recherche. Dans cette optique, un devis mixte séquentiel explicatif implique un processus de recherche en deux phases chronologiques, soit une première partie quantitative suivie d'une seconde partie qualitative. Ce type de devis mixte permet alors d'expliquer et de détailler les données initiales quantitatives grâce à l'apport des données qualitatives collectées dans un second temps (Creswell, 2013). Dans le cadre de cette thèse, la majeure partie quantitative est composée d'un essai thérapeutique contrôlé randomisé exploratoire auquel s'ajoute une partie qualitative de type exploratoire.

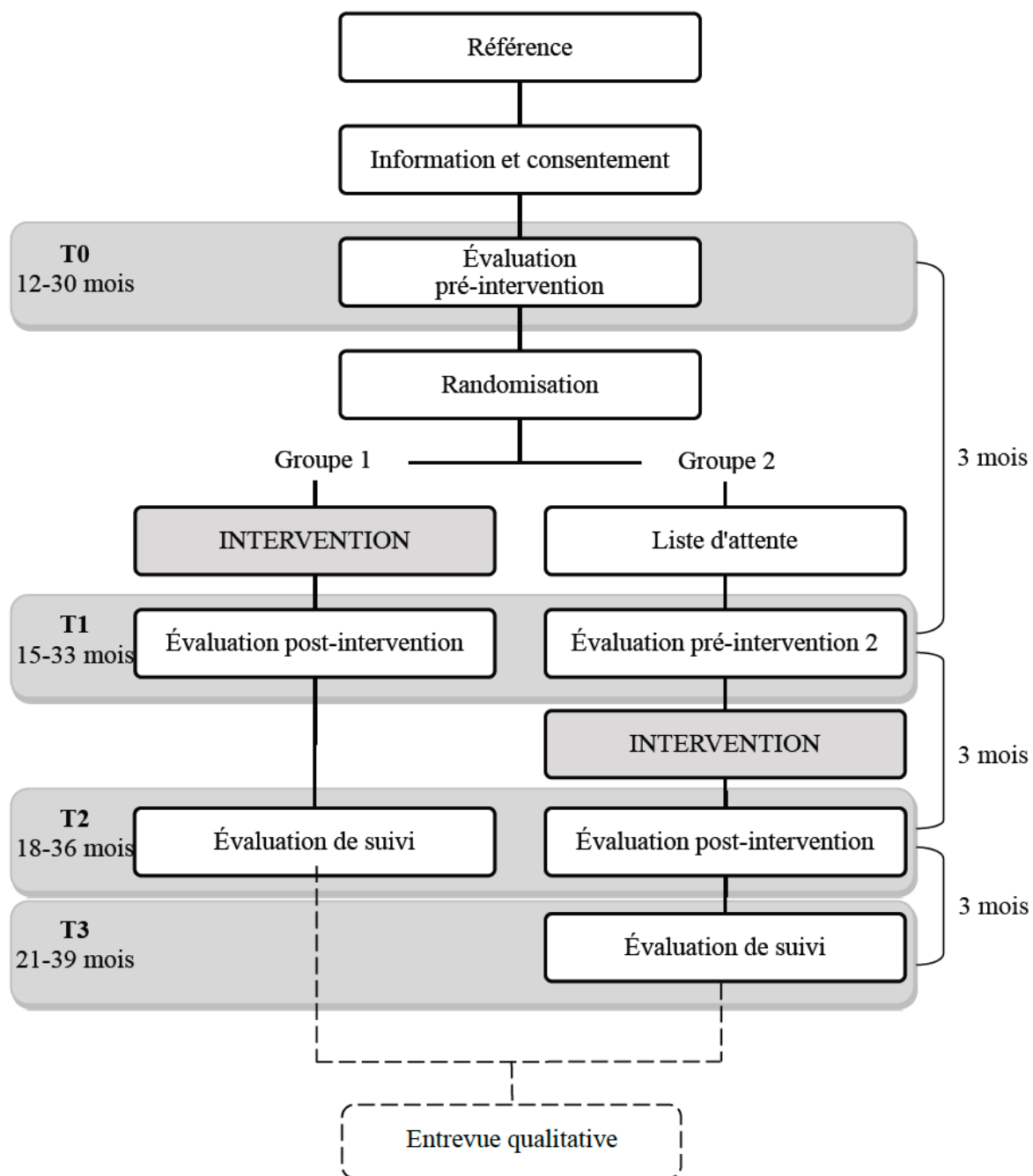
Tel que représenté à la figure 3, les enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion ou un diagnostic de TSA ont été randomisés par blocs à l'intérieur de deux groupes distincts, soit celui recevant immédiatement l'intervention (**Groupe 1 : Intervention**) ou celui en attente durant trois mois (**Groupe 2 : Liste d'attente**). Sachant que les enfants qui reçoivent une intervention plus jeune ont un meilleur pronostic (Ganz, 2007; Rogers et al., 2012a), une randomisation en bloc a été effectuée en fonction de l'âge des participants afin d'éviter les biais liés à l'âge d'intervention. La randomisation des participants dans un des deux groupes a été effectuée à l'aide d'une table de nombres aléatoires. Pour chaque bloc de quatre participants de 12 à 17 mois, deux étaient donc randomisés dans le groupe 1 (Groupe intervention) et deux dans le groupe 2 (Groupe liste d'attente). Le même principe était également appliqué aux enfants âgés de 18 à 30 mois. Ainsi, lorsque l'admissibilité des participants était confirmée, la responsable du projet, Audrey Jeanne Beaudoin ouvrait devant les parents l'enveloppe scellée correspondante au groupe d'âge et au numéro du participant (ordre croissant en fonction de la date de la première évaluation) dans laquelle le groupe de randomisation était identifié. Il est à noter que peu importe le groupe de randomisation auxquels les familles ont été attirées, toutes les familles ont eu la possibilité de recevoir le

programme d'accompagnement parental à l'étude. De plus, tous les participants à l'étude pouvaient également continuer les traitements usuels offerts aux jeunes enfants dépistés à risque ou avec un diagnostic de TSA. Ainsi, dans le cadre de cette thèse, le programme d'accompagnement parental a été utilisé en complémentarité aux traitements usuels (voir section 4.4 *Intervention* pour plus de détails sur le programme d'accompagnement parental et les traitements usuels).

Pour la composante quantitative, les familles participantes ont été évaluées aux trois mois, et ce, de trois (Groupe Intervention) à quatre fois (Groupe Liste d'attente) en fonction du groupe dans lequel ils ont été randomisés. Les participants des deux groupes étaient évalués au moins une fois avant l'intervention, une fois à la fin du programme et lors du suivi trois mois après la fin de l'intervention. Les participants du Groupe 2 (Liste d'attente) ont été évalués deux fois avant de recevoir l'intervention (*double baseline*), soit une première fois à leur entrée dans le projet et une seconde fois, trois mois plus tard, juste avant de débiter l'intervention. L'utilisation d'un groupe en liste d'attente a ainsi permis de contrôler le biais de maturation. Les participants du groupe Liste d'attente qui devaient attendre trois mois avant d'avoir accès au programme d'accompagnement parental étaient ainsi essentiels au devis de recherche en permettant d'avoir un groupe de comparaison fiable pour examiner les effets directs de l'intervention en comparaison aux effets de maturation sur trois mois.

La composante qualitative du projet de recherche s'est déroulée à la suite de la collecte de données quantitatives. Selon le niveau de satisfaction rapporté à l'évaluation post-intervention, six parents ont été invités à compléter une entrevue afin d'explorer la perception des parents face au programme d'intervention et leurs recommandations pour améliorer le programme en fonction de leurs besoins et réalités.

Figure 3
Déroulement du projet de recherche



Finalement, la phase d'intégration des données quantitatives et qualitatives s'est déroulée à la toute fin du projet. Pour ce faire, les données quantitatives et qualitatives recueillies au cours des deux phases précédentes ont été regroupées, comparées et intégrées en un tout cohérent (Tashakkori & Creswell, 2007). Cette intégration des données est une phase essentielle à tout devis de recherche mixte permettant de créer un sens cohérent avec l'ensemble des données qui est plus grand que la somme des parties. Ainsi, l'utilisation d'un devis séquentiel explicatif (Creswell, 2013) a permis de mesurer à la fois quantitativement et qualitativement les effets du programme jusqu'à trois mois après l'intervention.

3.2 Participants

Critères d'admissibilité

Pour être admissibles au projet de recherche, les participants devaient répondre aux critères d'inclusion suivants :

1. L'enfant est âgé de 12 à 30 mois lors de la première évaluation
2. L'enfant est identifié à risque de TSA
3. La famille a un niveau suffisant de français ou d'anglais qui leur permet de profiter de l'intervention offerte dans ces deux langues

Les participants potentiels étaient toutefois exclus de l'étude s'ils présentaient un ou plusieurs des critères suivants :

1. Problème visuel ou auditif chez l'enfant ou le parent (tel que rapporté par le parent) qui limiterait la possibilité de la famille de profiter pleinement de l'intervention
2. Trouble psychiatrique sévère chez le parent (tel que rapporté par le parent) qui limiterait la disponibilité du parent à bénéficier du programme d'accompagnement parental.
3. Épilepsie non contrôlée chez l'enfant (tel que rapporté par le parent) puisque cela pourrait influencer le développement de l'enfant indépendamment de l'intervention reçue malgré une compréhension encore très peu approfondie du phénomène (Tuchman & Rapin, 2002) et ainsi introduire un biais dans l'analyse de l'effet de l'intervention.

Stratégies de recrutement des participants

Le recrutement de familles ayant un enfant de 12 à 30 mois à risque de TSA s'est déroulé de l'été 2013 à l'hiver 2016. Le bassin initial de recrutement, soit à partir de l'été 2013, incluait

les régions administratives des Cantons-de-l'Est et de la Montérégie. À l'automne 2015, le bassin de recrutement a été élargi afin d'y inclure la région de Montréal.

Le recrutement de familles ayant un enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA dans les différentes régions a été effectué selon trois mécanismes simultanés; 1) un projet de recherche sur le dépistage des TSA, 2) une référence des intervenants cliniques et 3) le bouche-à-oreille.

Premièrement, les familles pouvaient être référées par l'entremise d'une étude parallèle menée par Pre Mélanie Couture sur la détection précoce de TSA. Cette étude visait à dépister des jeunes enfants entre 12 et 24 mois à risque de TSA via l'entremise d'un programme régional de dépistage précoce en collaboration avec les médecins de familles, pédiatres, cliniques de vaccinations et garderies des Cantons-de-l'Est. Ce dépistage à niveaux multiples incluait les mêmes étapes utilisées dans le présent projet pour identifier les enfants à risque de TSA (se référer aux critères d'admissibilité à la section 4.2 *Participants*), soit :

1. Un court questionnaire de dépistage du TSA complété par le parent, soit le *Modified Checklist for Autism in Toddlers – Revised* (M-CHAT-R) ou l'*Infant-Toddler Checklist* (ITC) en fonction de l'âge de l'enfant
2. Un suivi téléphonique par un membre de l'équipe de recherche auprès du parent pour confirmer les préoccupations rapportées dans le questionnaire, soit le *Caregiver Questionnaire* ou le M-CHAT-R *Follow-up* en fonction de l'âge de l'enfant
3. Une évaluation approfondie des comportements de l'enfant en fonction de l'*Autism Diagnosis Observation Schedule – Toddler module* (ADOS-T) et de l'*Autism Diagnosis Interview – Revised* (ADI-R)

Lorsque les enfants présentaient un risque de TSA après l'ensemble de ces étapes, l'équipe de recherche leur présentait globalement le présent projet de recherche visant à documenter les effets du programme d'accompagnement parental. De plus, les parents se voyaient remettre une feuille d'informations résumant le projet de recherche et l'implication attendue de la part de la famille en plus de présenter un numéro de téléphone et une adresse courriel pour rejoindre l'équipe du présent projet de recherche.

Deuxièmement, l'équipe de recherche a développé des liens de collaboration avec différents services de santé et de services sociaux dans les trois régions administratives qui constituaient le bassin géographique de recrutement. Ainsi, plusieurs familles ont été référées par leurs intervenants cliniques (ex. : infirmières, orthophonistes, travailleurs sociaux et neurologues pédiatres). Ces collaborateurs cliniques remettaient alors une feuille d'informations aux parents d'enfants de 12 à 30 mois pour qui une suspicion de TSA avait été soulevée. Cette lettre d'informations résumait le projet de recherche et l'implication attendue de la part de la famille en plus de présenter un numéro de téléphone et une adresse courriel pour rejoindre l'équipe de recherche. Considérant les modifications qui ont eu lieu au cours de l'année 2015 suite à l'adoption par l'Assemblée nationale de la Loi modifiant l'organisation et la gouvernance du réseau de la santé et des services sociaux par la création des centres intégrés de santé et de services sociaux (CISSS) et centres intégrés universitaires de santé et de services sociaux (CIUSSS) (Gouvernement du Québec, 2015; Ministère de la santé et des services sociaux du Québec, 2015), le tableau 5 énumère les institutions et programmes qui ont collaboré au projet de recherche avant et après la fusion des établissements de santé de 2015.

Tableau 5

Institutions et programmes de santé et services sociaux ayant collaboré au recrutement de familles avec un enfant à risque de TSA

| Région administrative | Services de santé et de services sociaux avant 2015 | Services de santé et de services sociaux après 2015 |
|--|--|---|
| Cantons-de-l'Est (2013-2016) | <ul style="list-style-type: none"> - CSSS – Institut universitaire de gériatrie de Sherbrooke <ul style="list-style-type: none"> • Service intégré en périnatalité et petite enfance • Programme déficience intellectuelle et trouble du spectre de l'autisme • Programme Enfance-Famille - Centre hospitalier universitaire de Sherbrooke (CHUS) <ul style="list-style-type: none"> • Neurologie pédiatrique • Pédopsychiatrie | <ul style="list-style-type: none"> - CIUSSS de l'Estrée – CHUS <ul style="list-style-type: none"> • Service intégré en périnatalité et petite enfance • Programme déficience intellectuelle et trouble du spectre de l'autisme • Programme Enfance-Famille • Neurologie pédiatrique • Pédopsychiatrie |
| Montérégie (2013-2016) | <ul style="list-style-type: none"> - CSSS Haute-Yamaska <ul style="list-style-type: none"> • Accueil psychosocial • Programme jeunesse | <ul style="list-style-type: none"> - CIUSSS de l'Estrée – CHUS <ul style="list-style-type: none"> • Accueil psychosocial • Programme jeunesse |
| Montréal (2015-2016) | n/a | <ul style="list-style-type: none"> - CIUSSS du Centre-Ouest-de-l'Île-de-Montréal <ul style="list-style-type: none"> • Programme Enfance-Famille - CIUSSS du Nord-de-l'Île-de-Montréal <ul style="list-style-type: none"> • Clinique enfance famille - Clinique communautaire Pointe-Saint-Charles <ul style="list-style-type: none"> • Équipe enfance famille jeunesse |

Troisièmement, les parents qui contactaient l'équipe de recherche spontanément pour participer au projet de recherche, peu importe le mécanisme qui leur a permis de prendre connaissance du projet (affiches de recrutement, bouche-à-oreille, consultation du site web du laboratoire de recherche) pouvaient également prendre part au projet s'ils répondaient aux critères d'admissibilité de la recherche.

Peu importe le mécanisme de recrutement initial, les parents qui souhaitaient de plus amples informations sur le présent projet de recherche ou qui étaient intéressés à y participer contactaient directement l'équipe de recherche. Donc, seuls les parents qui consentaient à avoir plus d'informations sur le projet étaient en lien avec l'équipe de recherche. Audrée Jeanne Beaudoin (candidate au doctorat) était la personne responsable de présenter globalement le projet aux parents intéressés par téléphone. L'âge de l'enfant était également évalué lors du premier contact téléphonique afin de vérifier que l'enfant était bel et bien âgé entre 12 et 30 mois.

Pour les familles qui acceptèrent de participer au projet de recherche, Audrée Jeanne Beaudoin se déplaçait alors à domicile pour décrire le projet de recherche, expliquer l'implication liée à leur éventuelle participation, présenter le formulaire de consentement et répondre aux questions des parents. La première séance d'évaluation était ensuite réalisée pour les parents pour qui un consentement libre et éclairé a été obtenu. Cette première séance d'évaluation, en l'absence de l'enfant, permettait à l'évaluatrice de collecter des données sociodémographiques et vérifier l'absence de tous critères d'exclusion. Par la suite, elle complétait avec les parents deux étapes de dépistage en fonction de l'âge de l'enfant, soit :

- Enfants de 12 à 17 mois : Questionnaire ITC suivi du *Caregiver Questionnaire* (Wetherby et al., 2008)
- Enfants de 18 à 30 mois : Questionnaire M-CHAT-R suivi du *M-CHAT-R Follow-up* (Robins et al., 2014)

Par la suite, Mélanie Couture ou Audrée Jeanne Beaudoin complétait avec les parents l'entrevue sur les symptômes autistiques que présente l'enfant (ADI-R) afin de confirmer la suspicion de TSA et d'assurer l'éligibilité de l'enfant au projet de recherche. Les familles intéressées et admissibles à participer au projet étaient alors invitées à compléter les évaluations préintervention avec l'enfant soit en clinique pour les participants résidant dans les Cantons-de-l'Est et en Montérégie ou à domicile pour les participants de la région de Montréal. La dernière étape de vérification des critères d'admissibilité était complétée lors de cette première séance d'évaluation en présence de l'enfant. À cette étape, Audrée Jeanne Beaudoin complétait le module pour nourrisson de l'ADOS (ADOS-T).

Il est à noter que les familles référées par le projet de recherche connexe sur le dépistage des TSA n'avaient pas à compléter ces étapes de vérification de la présence de manifestations liées au TSA (questionnaires de dépistage, histoire développementale et évaluation des manifestations du TSA) car ces mêmes étapes étaient effectuées dans le cadre du projet précédent. Avec l'accord des parents, les résultats aux évaluations effectués dans le cadre du projet de dépistage populationnel étaient alors utilisés plutôt que de refaire les évaluations.

Selon le protocole de recherche, le recrutement du sous-échantillon pour compléter l'entrevue individuelle se basait sur le niveau de satisfaction des parents tel que rapporté dans un court questionnaire complété à l'évaluation de suivi (voir section 4.5.5 *Outils de mesure de la validité sociale du programme*). Par contre, au cours de la collecte de données, l'équipe de recherche a observé que les participants au projet de recherche provenaient de milieux socioéconomiques et culturels fortement diversifiés. En fonction de ce constat fait en cours de route, une attention a également été portée afin d'avoir une certaine représentativité socioéconomique et culturelle dans le sous-échantillon complétant l'entrevue. Pour être admissibles à cette entrevue, les familles devaient minimalement avoir complété l'évaluation préintervention, les 12 séances d'intervention et l'évaluation post-intervention. Un échantillonnage raisonné de six familles a donc été réalisé à partir des 19 participants participant à l'étude afin de recruter un sous-échantillon représentatif du niveau de satisfaction de l'intervention et de la diversité socioculturelle de l'échantillon original. En ce sens, une attention particulière a été mise afin de recruter des cas diversifiés, représentant le plus possible l'ensemble de l'étendue possible d'expériences. Cet échantillonnage raisonné avait comme objectif de mettre en évidence les aspects similaires et contradictoires du vécu et de la perception de ces participants ayant des expériences diversifiées (niveau de satisfaction, statut socioéconomique, groupe ethnique, langue parlée à la maison).

3.3 Interventions

Peu importe le groupe dans lequel les participants ont été randomisés, toutes les familles participantes au présent projet de recherche ont reçu à un certain moment le programme d'accompagnement parental de 12 semaines. La randomisation déterminait si les familles devaient attendre (Groupe 2 : Liste d'attente) ou non (Groupe 1 : Intervention) avant d'avoir accès à ce service. De plus, tout au long du suivi dans le cadre de ce projet, l'ensemble des familles avaient accès aux services usuels d'intervention accessibles via le système public ou privé. Ainsi, le programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse est en ajout aux autres interventions utilisées par les familles participant au projet. Se référer à la section 3.5.1 *Outils de mesure pour caractériser l'échantillon* pour plus de détails sur les interventions reçus pendant la participation au projet de recherche.

3.3.1 *Programme d'accompagnement parental*

Le programme étudié dans le cadre de cette thèse est une adaptation effectuée par l'équipe de recherche qui est basée sur deux programmes d'intervention pour des enfants avec un TSA, soit le programme d'accompagnement parental : ESDM (Rogers & Dawson, 2010) et le SCERTS (Prizant et al., 2006). En combinant ces deux interventions, le présent programme d'accompagnement parental visait à fournir aux parents les outils pour s'engager, communiquer et favoriser le développement de leurs enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA dans leurs interactions quotidiennes.

L'intervention consistait en 12 séances d'intervention, originellement prévue pour se dérouler de façon hebdomadaire au domicile de la famille soit durant la semaine ou la fin de semaine à la convenance de la famille. Toutefois, considérant la réalité des familles participant au projet de recherche, il était possible qu'aucune intervention n'ait lieu durant une ou quelques semaines si la famille n'était pas disponible. Ainsi, les 12 interventions se sont déroulés en moyenne sur une période de quatre mois.

À chacune des séances d'intervention, une nouvelle stratégie était enseignée au parent. Les stratégies provenaient majoritairement du programme d'accompagnement parental du ESDM. De fait, les 10 stratégies du ESDM ont été présentées au parent. Toutefois, deux

thèmes provenant du modèle d'intervention SCERTS ont été ajoutés au programme. Le tableau 6 souligne l'apport des deux sessions provenant du modèle SCERTS qui visaient spécifiquement à renforcer les thèmes liés à la régulation émotionnelle au cours des 12 semaines d'intervention.

Tableau 6
Thématiques des 12 sessions d'intervention

| Thèmes abordés | Provenance | Composante ciblée | | |
|---|------------|-------------------------|-----------------------|-----------|
| | | Régulation émotionnelle | Communication sociale | Cognition |
| 1. Disponibilité aux apprentissages | SCERTS | X | | |
| 2. Capter l'attention de son enfant | ESDM | | X | |
| 3. Avoir du plaisir avec les routines sociosensorielles | ESDM | X | | |
| 4. Lire les émotions de son enfant | SCERTS | X | | |
| 5. Construire des interactions réciproques | ESDM | | X | |
| 6. La communication non verbale | ESDM | | X | |
| 7. Apprentissage par imitation | ESDM | | | X |
| 8. Comment les enfants apprennent-ils? | ESDM | | | X |
| 9. Le triangle de l'attention conjointe | ESDM | | X | |
| 10. Jouer | ESDM | | | X |
| 11. Faire semblant | ESDM | | | X |
| 12. Le langage | ESDM | | X | |

Les différentes sessions d'intervention ont toutes suivi la structure détaillée dans le manuel pour parent du ESDM (Rogers et al., 2012b). Plus précisément, les douze séances d'intervention étaient structurées comme suit :

- 1) Retour sur la dernière semaine avec le parent
- 2) Période de jeu de dix minutes filmée entre le parent et son enfant
- 3) Rétroaction sur la période de jeu et retour sur les thèmes précédents
- 4) Introduction d'un nouveau thème et démonstration par la thérapeute

- 5) Pratique de la stratégie en période de jeu filmée (dix minutes) entre le parent et l'enfant avec conseils du thérapeute au besoin
- 6) Discussion sur les opportunités de pratiquer la stratégie au cours de la prochaine semaine dans les routines naturelles

De plus, les thérapeutes prenaient le temps d'écouter, de discuter ou de référer les familles concernant toutes autres préoccupations qui ressortaient pendant les séances d'intervention. Ainsi, le temps d'intervention variait entre 45 et 90 minutes par session en fonction des questions et préoccupations relevées par les parents.

À la suite de la séance d'intervention, les parents étaient encouragés à incorporer les stratégies enseignées au cours des interactions quotidiennes avec leur enfant. En effet, ce programme d'accompagnement parental visait ainsi à optimiser les interactions parent-enfant déjà présentes dans la routine en transformant les activités quotidiennes entre le parent et son enfant en des moments d'apprentissage pour l'enfant. Pour ce faire, le thérapeute mettait l'accent sur l'importance d'incorporer ces stratégies dans le contexte naturel des interactions parent-enfant. Il est important de souligner que ce programme d'accompagnement parental ne vise pas à augmenter le fardeau des aidants. Au contraire, il est anticipé que lorsque les stratégies sont implantées dans le contexte naturel, les interactions spontanées parent-enfant deviennent alors des opportunités pour l'enfant d'apprendre et de communiquer sans demander d'effort indu pour les parents.

À l'instar de la rétroaction par vidéo effectuée dans le programme *Pre-School Autism Communication Therapy* (PACT) (Green et al., 2010) et du *Intervention in the British Autism Study in Infant-Video Interaction for Promoting Positive Parenting* (iBASIS-VIPP) (Green et al., 2015), une rétroaction par vidéo a été ajoutée au programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse. Cet ajout audiovisuel au processus d'intervention du ESDM qui n'inclut pas d'utilisation de vidéo comme modalité d'intervention a été fait afin d'offrir un moyen de rétroaction positif et concret pour les parents pouvant ainsi observer des réussites et des améliorations depuis le début de l'intervention. Pour ce faire, un montage vidéo d'une durée d'environ cinq minutes regroupant des moments d'interaction réciproque

entre le parent et son enfant a été présenté au parent lors de la troisième phase de l'intervention (rétroaction sur la période de jeu et retour sur les thèmes précédents) lors de la septième rencontre d'intervention. Ce montage vidéo se faisait à partir des séquences vidéo obtenues dans les séances d'intervention précédentes soit lors de la deuxième étape qui inclut une période de jeu de dix minutes filmée entre le parent et son enfant. Les séquences ont été choisies afin de représenter les moments où le parent utilisait adéquatement des stratégies enseignées ainsi que pour mettre de l'avant certaines interactions réciproques qui ont eu lieu entre le parent et l'enfant. La rétroaction via du matériel audiovisuel est reconnue comme un moyen de favoriser l'apprentissage chez les adultes qui est complémentaire à la rétroaction verbale déjà incluse dans le programme d'intervention proposé (Fanning & Gaba, 2007).

L'intervention a été offerte aux familles via deux thérapeutes. La thérapeute principale (Audrée Jeanne Beaudoin, candidate au doctorat en recherche en sciences de la santé, Université de Sherbrooke) est une ergothérapeute avec de l'expérience avec la clientèle présentant un TSA qui a complété la formation avancée au ESDM (octobre 2012), une formation continue sur l'adaptation québécoise du modèle SCERTS (février 2013) ainsi qu'une formation sur le modèle PACT (mai 2014). C'est cette ergothérapeute et candidate au doctorat qui a adapté le programme d'accompagnement évalué dans le cadre de cette thèse. De plus, elle a effectué les interventions auprès de 16 familles (84.2%). Un second thérapeute (Zakaria Mestari, étudiant à la maîtrise en recherche en sciences de la santé, Université de Sherbrooke) ayant également une expérience antérieure au niveau de l'intervention auprès des enfants présentant un TSA et ayant complété la formation avancée au ESDM a pris en charge les interventions auprès de 3 familles (15.8%).

Il est à noter que 18 des 19 familles (95%) ont complété les 12 séances d'intervention. La seule famille n'ayant pas complété l'ensemble des séances d'intervention s'est retiré du projet après deux séances d'intervention en raison d'un changement au niveau socioprofessionnel de la mère, rendant sa participation au projet de recherche difficile à gérer dans son horaire. Cette famille était randomisée dans le groupe Liste d'attente.

3.3.2 *Traitement usuel*

Les traitements usuels offerts à la clientèle avec une suspicion de TSA en attente d'une évaluation pédopsychiatrique au Québec varient grandement d'une région administrative à l'autre. En effet, malgré des recommandations gouvernementales provinciales (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003), les interventions précoces auprès des enfants avec une suspicion de TSA ne sont pas standardisées.

En Estrie, un intervenant pivot d'un des sept Centres de santé et des services sociaux (CSSS) est affecté à chaque enfant et coordonne les services et offre du soutien psychosocial à l'enfant et à sa famille au besoin. De plus, le CSSS offre des mesures de soutien aux proches telles que le répit et le gardiennage. Ainsi, les principaux services offerts par les CSSS de la région de l'Estrie sont des services psychosociaux de première ligne à domicile. De son côté, le Centre Hospitalier Universitaire de Sherbrooke (CHUS) a le mandat d'évaluation des enfants avec une suspicion de TSA. Suite au diagnostic de TSA, le CRDITED de l'Estrie est responsable d'offrir des services spécialisés de deuxième ligne à l'ensemble de la population estrienne avec un TSA. Cet établissement n'offre toutefois pas de services aux enfants avec une suspicion de TSA. De plus, certains professionnels de la santé offrent des services en privés aux jeunes enfants avec une suspicion ou un diagnostic de TSA, pour lesquels la famille doit défrayer les coûts. Les interventions reçues sont alors très hétérogènes. Finalement, du soutien est offert par des groupes communautaires tels que la Société de l'autisme et des troubles envahissants du développement de l'Estrie.

Il est toutefois important de souligner que malgré la possibilité de bénéficier des services usuels tout au long du projet de recherche, très peu de familles ont bénéficié de services du système public, privé ou communautaire. Se référer à la section 3.5.1 *Outils de mesure pour caractériser l'échantillon* pour plus de détails sur les services reçus pendant la participation des familles au projet de recherche.

3.4 Collecte de données et suivi

Le suivi des participants a débuté lorsque les enfants étaient âgés entre 12 et 30 mois. Ils étaient alors périodiquement évalués aux trois mois pour un total de trois à quatre évaluations

en fonction du groupe de randomisation. Les participants randomisés dans le Groupe Intervention ont été évalués à trois reprises, soit une évaluation avant le début de l'intervention (T1; préintervention), une évaluation immédiatement après l'intervention (T2; post-intervention) et une rencontre trois mois après la fin de l'intervention (T3; suivi). Les familles dans le Groupe Liste d'attente ont quant à eux été évaluées quatre fois, soit une évaluation dès le recrutement (T1; ligne de base), une rencontre avant le début de l'intervention (T2; préintervention), une évaluation immédiatement après l'intervention (T3; post-intervention) et une rencontre trois mois après la fin de l'intervention (T4; suivi). Lors des différents temps d'évaluation, une partie de l'évaluation était effectuée en observation directe avec l'enfant alors que l'autre partie comprenait des questionnaires autoadministrés par les parents. Les évaluations directes avec l'enfant se sont déroulées à la convenance des parents afin de minimiser la perturbation de l'horaire des familles. Les évaluations se sont déroulées soit dans un local approprié pour l'évaluation de jeunes enfants avec leur(s) parent(s) d'un CSSS collaborateur (n=14) ou à la maison de certains participants (n=5) lorsqu'il était impossible d'avoir accès à un local d'un CSSS collaborateur à moins de 20 kilomètres de la maison de la famille. Ces périodes d'évaluations filmées avec l'enfant d'une durée maximale de 75 minutes ont été menées par des étudiantes graduées ergothérapeutes dûment formées à tous les tests standardisés, et supervisés par les chercheurs principaux. Spécifiquement, la première évaluation était toujours effectuée par la thérapeute principale afin de collecter de l'information sur l'enfant, d'apprendre à connaître la famille et ainsi d'individualiser l'intervention en fonction des besoins spécifiques de la famille. Deux autres étudiantes graduées ergothérapeutes à l'aveugle du groupe de randomisation des participants et du temps d'évaluation se sont partagées les évaluations subséquentes.

Finalement, un sous-échantillon de six familles a été recruté afin de partager leur expérience lors d'une entrevue individuelle d'une durée maximale d'une heure. L'entrevue a été animée par une étudiante au doctorat externe au projet de recherche ayant une grande expérience au niveau de la recherche qualitative et des entrevues auprès de parents ayant des enfants avec un trouble neurodéveloppemental afin de minimiser le biais de désirabilité sociale et d'encourager l'ouverture des parents lors de l'entrevue. Ces entrevues se sont déroulées soit en face à face (n=1) ou au téléphone (n=5), à la convenance des parents. Les mesures

nécessaires étaient mises en place pour favoriser l'établissement d'une relation de confiance et d'un climat d'échange. Lors des entrevues, les parents étaient invités à partager librement leur expérience et leurs préoccupations face à l'intervention dans une optique d'amélioration du programme d'accompagnement parental. Se référer à la figure 3 pour une représentation graphique du déroulement de la collecte de données.

3.5 Variables et instruments de mesure

À l'instar de l'intervention, la collecte de données pouvait être complétée en français ou en anglais selon la préférence de la famille.

3.5.1 Outils de mesure pour caractériser l'échantillon

Dépistage du TSA : Premièrement, les parents ont rempli deux questionnaires de dépistage du TSA afin d'assurer l'admissibilité des participants.

Pour les enfants entre 17 mois et moins, les parents complétèrent la section ITC du *Communication and Symbolic Behaviour Scales-Developmental Profile* (Wetherby et al., 2004). L'ITC est un court questionnaire conçu pour dépister les retards de communication qui comprend 24 questions à choix de réponses sur le développement de la communication sociale de l'enfant. Les enfants avec un résultat sous le 10^e percentile au score global ou à l'une des sous-échelles (sociale ou symbolique) sont considérés comme à risque de TSA ou autres retards de développement. Les parents pour lesquels leur enfant cotait à risque en fonction du score au ITC complétèrent ensuite via téléphone le *Caregiver Questionnaire* du *Communication and Symbolic Behaviour Scales-Developmental Profile* (Wetherby et al., 2002). Ce questionnaire de quatre pages permettait d'approfondir l'évaluation des habiletés de communication de l'enfant. À l'instar de l'ITC, les enfants avec un résultat sous le 10^e percentile au score global ou à l'une des sous-échelles (sociale ou symbolique) seront considérés comme à risque de TSA ou autres retards de développement. Il est à noter que les familles préférant répondre aux questionnaires en français ont complété une traduction et adaptation maison de l'ITC puisque aucune version francophone n'est validée. Les études de validités ont démontré que cet outil a des valeurs positives et négatives au-dessus de 70% pour les enfants entre neuf et 24 mois (Wetherby et al., 2004, 2008) et une forte corrélation

avec la présence de troubles développementaux à 24 mois (Wetherby et al., 2002). Ainsi un dépistage positif à ces deux étapes soutient fortement la présence d'un TSA ou d'un autre retard de communication, mais ne distingue pas ces deux groupes d'enfants (Wetherby et al., 2004, 2008).

La version originale anglophone (Robins et al., 2009a) ou la version canadienne-française (Robins et al., 2009b) du *M-CHAT-R* a été complétée par les parents **d'enfants entre 18 et 30 mois**. Le *M-CHAT-R* est un outil d'évaluation standardisé, téléchargeable gratuitement, conçu pour dépister spécifiquement les TSA auprès d'une population générale ou à risque. Le questionnaire comprend 23 questions à choix de réponse (oui/non) et est rempli par les parents. Lorsque le score au questionnaire se situait selon une cotation à risque de TSA (score de trois ou plus au questionnaire *M-CHAT-R*), les parents ont alors complété par téléphone l'évaluation de suivi *M-CHAT-R Follow-up* qui consiste à explorer en détails les réponses au questionnaire papier. Tel que recommandé par Robins et collaborateurs (2014), les enfants étaient considérés à risque de TSA si le score du M-CHAT-R était supérieur ou égal à trois et que le score au M-CHAT-R Follow-up était supérieur ou égal à 2. Selon une étude de validité auprès de 15 612 enfants âgés entre 16 à 30 mois, l'utilisation du M-CHAT-R et M-CHAT-R Follow-up présente de meilleures qualités psychométriques que la version initiale du M-CHAT et M-CHAT Follow-up (Robins et al., 2001), soit une sensibilité de 0,85, une spécificité de 0,99, une valeur prédictive positive de 0,48 et une valeur prédictive négative de 0,99 (Robins et al., 2014).

Deuxièmement, en cas de dépistage positif à la suite de la complétion des deux étapes de dépistage du TSA, une évaluation plus approfondie était effectuée. Cette évaluation comprenait également deux outils de mesure étalon pour juger de la présence de symptômes liés au TSA, soit 1) l'ADOS-T et 2) l'ADI-R (Rutter et al., 2003).

L'ADOS-T (Luyster et al., 2009), une mesure d'évaluation par observation directe en situation semi-structurée, a été complété par Mélanie Couture ou Audrée Jeanne Beaudoin, toutes deux ergothérapeutes ayant complété la formation adéquate à la passation de cet outil. Le module pour nourrisson de l'ADOS a été conçu pour être utilisé comme outil d'évaluation

pour les TSA pour les enfants de moins 12 à 30 mois. L'outil et les algorithmes ont été validés auprès de 182 enfants américains âgés entre 12 et 30 mois. L'échantillon comprenait 59 enfants avec un TSA, 45 enfants avec un retard de développement et 102 enfants avec un développement typique. Des scores par domaine (affect social et comportements répétitifs et restreints) et un score total peuvent être calculés à partir des résultats des items sur une échelle à quatre niveaux. Deux scores seuils ont été déterminés pour le résultat de l'algorithme, séparant ainsi les résultats en trois strates : 1) peu ou pas de préoccupations, 2) préoccupations légères à modérées et 3) préoccupations modérées à sévères. Dans le cadre de cette étude, le score seuil inférieur était utilisé pour confirmer la suspicion de TSA (score 10 et plus pour les enfants de 12 à 20 mois et pour les enfants non verbaux jusqu'à 30 mois; score de huit pour les enfants verbaux de 21 à 30 mois). Ainsi, tous les enfants présentant des préoccupations, de légères à sévères étaient considérées comme ayant des comportements pouvant suffisamment s'apparenter au TSA pour être considérés comme ayant une suspicion de TSA. L'algorithme de la version pour enfant de 12 à 20 mois ou enfants de 21 à 30 mois non verbaux et de celle pour enfants verbaux de 21 à 30 mois ont des bonnes qualités psychométriques avec des valeurs de sensibilité respectives de 72,34% et de 82,14% ainsi que des valeurs de spécificité de 98,88% et de 97,67% (Esler et al., 2015; Luyster et al., 2009).

L'ADI-R (Rutter et al., 2003), une entrevue semi-structurée, a ensuite été complété également par Mélanie Couture ou Audrée Jeanne Beaudoin. Cet outil permet de recueillir des informations sur l'histoire développementale de l'enfant auprès des parents dans les trois domaines principalement atteints par les TSA, soit les interactions sociales réciproques, la communication et les comportements stéréotypés et répétitifs. Cet outil a été validé auprès des très jeunes enfants (de Bildt et al., 2015). Considérant que les enfants inclus dans cette étude étaient très jeunes, une période de 45 à 90 minutes était habituellement suffisante pour compléter cet outil. Les scores seuils pour le diagnostic ont été utilisés pour vérifier l'admissibilité en fonction de l'ADI-R (Rutter et al., 2003). Les enfants manifestant des suspicions de TSA dans au moins trois des quatre échelles de l'ADI-R étaient considérés à risque de TSA.

Finalement, l'admissibilité au projet de recherche reposait sur le jugement clinique de l'évaluatrice à la lumière des résultats combinés de l'ADOS-T et de l'ADI-R.

Données sociodémographiques : Un questionnaire sociodémographique maison a été créé afin de collecter des données concernant l'enfant (âge, sexe, conditions associées), le parent (âge, sexe, scolarité, occupation, conditions médicales) et la famille (langues parlées à la maison, nombre d'enfants, revenu net). Ce questionnaire a été rempli par le parent lors de la première séance d'évaluation uniquement (T1). Voir *Annexe 1 Questionnaire sociodémographique* pour un exemplaire de l'outil de collecte de données maison.

Implantation des stratégies par les parents : À chaque visite d'évaluation, le parent et l'enfant étaient filmés pendant une période de jeu d'environ 10 minutes. Il était alors demandé aux parents de jouer avec leur enfant comme il le ferait normalement. Le visionnement des séances de jeu aux différents temps de mesure a ainsi permis de coter l'implantation des stratégies du ESDM dans les périodes de jeu avec leur enfant en fonction des critères du ESDM *Fidelity Scale* (Rogers & Dawson, 2010). Cet outil de mesure a ainsi permis de quantifier le niveau de maîtrise des techniques du ESDM par les parents. Il est à noter que le niveau de maîtrise escompté pour des thérapeutes formés au ESDM est de 80%. C'est-à-dire que pour être considérés comme utilisant de façon appropriée les techniques du ESDM, les thérapeutes doivent avoir en moyenne des cotes de 4/5 aux 13 items de l'outil de mesure ou un score total de 52/65 (Dawson et al., 2010). Ainsi, bien qu'il est souhaitable que les parents atteignent de hauts niveaux de fidélité d'implantation des stratégies, il serait normal de voir des taux d'implantation sous la barre des 80% qui est fixé pour des thérapeutes expérimentés et formés à cette méthode d'intervention.

De plus, il était demandé aux parents de rapporter l'implantation des stratégies dans leurs activités quotidiennes pendant la semaine. Pour ce faire, un journal de bord était remis aux parents. Voir *Annexe 2 Échantillon du journal de bord* pour un aperçu de l'outil. Cet outil de mesure visait ainsi à collecter des données sur le temps, les moments et les activités durant lesquelles les parents utilisaient les stratégies. Malheureusement, les parents n'ont pas complété le journal de bord de façon assidue. De plus, les premiers participants au projet de

recherche ont rapporté à la candidate au doctorat la lourdeur que consistait la complétion de ce document. De fait, une mère a d'ailleurs exprimé la lourdeur et l'absence de fiabilité des données collecter via le journal de bord ainsi : « mais de devoir écrire “quand je l'ai fait”, je finissais par écrire “une fois” [...] donc c'était approximatif mon affaire ». Considérant que les données recueillies par cet outil de mesure n'étaient pas fiables, le journal de bord a été éliminé des outils de mesure au cours de l'expérimentation. Ainsi, aucune donnée n'est disponible quant à l'implantation des stratégies dans la vie quotidienne de la famille en l'absence du thérapeute.

Autres services reçus : Puisqu'une grande hétérogénéité des services reçus peut être observée chez les jeunes enfants avec une suspicion de TSA (voir section 4.3.2 *Traitement usuel*), une grille permettant de connaître précisément les services de santé et de services sociaux utilisés par la famille pour leur enfant avec une suspicion de TSA sera complétée pour tous les participants au deuxième, troisième et quatrième temps de mesure le cas échéant. Plus précisément, la grille maison a permis de collecter le type et l'intensité des services reçus au cours des trois derniers mois, notamment en ce qui a trait aux services dans un centre hospitalier, dans un CRDITED, dans un service de première ligne, dans des ressources communautaires, dans le secteur privé ou dans d'autres institutions (ex. : centre de réadaptation en déficience physique). Voir *Annexe 3 Grille des services reçus* pour un exemplaire de l'outil de collecte de données maison.

Tel que mentionné précédemment, très peu de familles ont bénéficié de services du système public ou privé. En effet, lors des trois premiers mois de suivi, les familles ont reçu une médiane de 0 heure/semaine d'intervention autre que le programme d'accompagnement parental, et ce peu autant pour les familles randomisées dans le groupe Intervention (médiane : 0 heures/semaine; minimum : 0 heure/semaines; maximum : 2.5 heures/semaine) que celles assignées au groupe Liste d'attente (médiane : 0 heure/semaine; minimum : 0 heure; maximum : 1 heure/semaine). Parmi les familles ayant reçu des interventions autres que le programme d'accompagnement parental, ceux-ci ont essentiellement bénéficié de groupes de stimulation précoce, de services d'orthophonie et de gardiennage. Le tableau 7

présente les détails des services les plus souvent utilisés par les familles pendant leur participation au projet de recherche.

Tableau 7. Services reçus pendant la participation des familles au projet de recherche

| | Nombre de familles ayant utilisé le service (pourcentage) | Nombre d'heures de service reçu par semaine |
|---------------------|---|--|
| Stimulation précoce | 4 (21%) | Minimum : 0.5h/semaine Maximum : 1.5h/semaine |
| Orthophonie | 3 (16%) | Minimum : 0.2h/semaine Maximum : 1h/semaine |
| Gardiennage | 2 (11%) | Minimum : 0.6h/semaine Maximum : 0.8h/semaine |

3.5.2 Outils de mesure de l'interaction parent-enfant

Le *Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* (Adamson et al., 2013) était l'outil d'évaluation principal permettant de répondre à l'objectif primaire. Celui-ci a été complété à tous les temps de mesure. Cette évaluation par observation directe quantifie l'interaction parent-enfant via 17 échelles de sept points (1 étant le score le plus faible et 7 le score le plus élevé) à partir d'une période de jeu non structuré entre le parent et l'enfant. Plus précisément, le score total était la mesure principale de cet essai randomisé croisé afin d'évaluer les effets du programme d'accompagnement parental sur la qualité et la réciprocité de l'engagement dyadique entre le jeune enfant à risque de TSA et son parent. Les quatre sous-échelles ont, quant à elle, permis de détailler l'effet de l'intervention sur l'engagement conjoint (*Engagement State*), les comportements de l'enfant (*Child Behavior*), les comportements du parent (*Caregiver Behavior*) et l'intérêt porté envers un sujet conjoint (*Shared Topic*). Les scores bruts ont été utilisés pour analyser l'effet de l'intervention puisqu'aucune norme n'est actuellement disponible pour cet outil de mesure. Préalablement utilisé auprès d'enfants avec un développement typique (entre 18 et 30 mois), d'enfants avec un TSA (âgé de 30 mois) et d'enfants avec la trisomie 21 (âgé 30 mois), l'*Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* est adapté aux particularités des interactions parent-enfant dans le contexte d'un TSA. En effet, l'outil démontre des

différences significatives dans l'interaction parent-enfant chez ces différentes clientèles (Adamson et al., 2012).

Utilisé jusqu'à présent selon le *Communication Play Protocol* sur six périodes de jeu structurées de 6 minutes (Adamson et al., 2001, 2009, 2013) nous avons utilisé, avec l'approbation de la conceptrice, la codification proposée dans une période de jeu non structurée de 10 minutes entre le parent et son enfant. Pour assurer la validité des résultats à cet outil de mesure qui correspond à la variable principale de l'étude, deux évaluatrices externes au projet de recherche (étudiantes en ergothérapie et assistantes de recherche) ont coté l'ensemble des vidéos d'interaction entre le parent et son enfant. Lors de la cotation des vidéos d'interaction, les vidéos ont été nommées de façon à ce que les deux évaluatrices soient à l'aveugle du groupe de randomisation et du temps d'évaluation auquel ont été filmés les clips audiovisuels. Seule la candidate au doctorat et thérapeute principale avait accès à la clé d'identification des vidéos. La cotation des vidéos s'est faite séparément par chacune des évaluatrices, qui suite à leur cotation indépendante ont comparé leurs scores aux 17 items.

La corrélation intraclass (CIC) est une méthode fiable de calculer la fidélité interjuge en présence de données ordinales cotées indépendamment par deux évaluateurs. Le calcul de la CIC permet d'intégrer la magnitude du désaccord entre deux juges dans l'estimation de l'accord interjuge. Pour calculer la fidélité interjuge du score global et des quatre échelles de l'*Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating*, la candidate au doctorat a analysé la cohérence absolue des mesures moyennes en utilisant un modèle mixte à deux niveaux (Hallgren, 2012). Tel que détaillé dans le tableau 8, un excellent accord interjuge a été atteint pour le score total au *Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* et à ses quatre échelles.

Tableau 8
Accord interjuge aux mesures d'interaction parent-enfant

| | Corrélation intraclasse |
|--------------------------------------|-------------------------|
| Total : Engagement dyadique | .957 |
| Échelle 1 : Engagement conjoint | .963 |
| Échelle 2 : Comportement de l'enfant | .984 |
| Échelle 3 : Comportement du parent | .983 |
| Échelle 4 : Sujet conjoint | .981 |

Lors de la comparaison des scores entre les évaluatrices, si une différence de plus d'un point sur l'échelle à sept niveaux était détectée, les évaluatrices discutaient de leur vision et arrivaient à un consensus sur ces items problématiques.

3.5.3 Outils de mesure du bien-être parental

Pour répondre au premier objectif secondaire, qui vise à évaluer les effets du programme sur le bien-être des parents d'enfants de 12 à 30 mois suspectés de TSA, les instruments de mesure suivants ont été utilisés.

Stress parental : La version francophone (Bigras et al., 1996) ou originale en anglais (Abidin, 1990) du *PSI-Short Form* a été complétée par les parents à tous les temps de mesure afin d'identifier les sources de stress dans la dyade parent-enfant. Le temps nécessaire pour remplir le questionnaire était d'environ 10 minutes. Les 36 items du questionnaire sont regroupés en trois domaines incluant la détresse parentale, l'interaction dysfonctionnelle parent-enfant et les stressors reliés à l'enfant. Le score total et les scores aux trois échelles ont été transformés en score standard en fonction des normes québécoises développées auprès d'un échantillon de 122 mères d'enfants d'âge préscolaire sont disponibles (Lacharité et al., 1992). La version originale américaine du PSI a de bonnes qualités métrologiques bien documentées et a été largement utilisée auprès des jeunes enfants avec des troubles développementaux, dont l'autisme (Baker-Ericzén et al., 2005). Les coefficients de fiabilité de chacun des domaines se situent entre 0.85 et 0.95 (Abidin, 1990). La version québécoise

de l'Inventaire de stress parental possède des coefficients de consistance interne équivalant à ceux obtenus avec l'échantillon américain, soit entre 0.55 et 0.97 (Lacharité et al., 1992).

Sentiment de compétence parentale : La version francophone (Terrisse & Trudelle, 1988) ou originale anglophone (Johnston & Mash, 1989) du *Parenting Sense of Competence* (PSOC) a été utilisée pour quantifier le sentiment d'efficacité parentale à chacun des temps de mesure. Pour ce faire, les parents indiquaient leur degré d'accord avec 17 énoncés sur une échelle de Likert à 6 niveaux. Tel que proposé par Gilmore et Cuskelly (Gilmore & Cuskelly, 2009), un score brut total et des scores bruts pour trois domaines (sentiment d'efficacité, sentiment de satisfaction et sentiment de compétence) ont été calculés à partir des réponses des participants. La version originale en anglais a été utilisée dans plusieurs études auprès de parents d'enfants avec un TSA (Donenberg & Baker, 1992; Rodrigue et al., 1990).

3.5.4 Outils de mesure du développement de l'enfant suspecté de TSA

Pour répondre au deuxième objectif secondaire, qui vise à évaluer les effets du programme sur le développement moteur, cognitif et des comportements adaptatifs, le *Bayley Scales of Infant and Toddler Development 3rd Edition* (Bayley, 2006) a été complété à tous les temps de mesure. Le *Bayley Scales of Infant and Toddler Development 3rd Edition* (Bayley, 2006) est un outil de mesure qui vise à identifier les enfants avec des retards de développement et de suivre le progrès développemental des enfants. Trois échelles (cognitive, motrice et comportements adaptatifs) du *Bayley Scales of Infant and Toddler Development 3rd Edition* ont été utilisées pour documenter les habiletés cognitives, de motricité fine et de motricité globale ainsi que les comportements adaptatifs du jeune enfant avec une suspicion de TSA.

Développement moteur et cognitif : Les échelles cognitive et motrice ont été complétées à l'aide d'observations directes de l'enfant dans différentes activités avec la thérapeute principale lors du premier contact et avec une des deux évaluatrices externes au projet de recherche et formées à l'outil de mesure aux temps d'évaluation suivants. Le temps nécessaire pour compléter ces deux échelles était d'environ 30 minutes. Les scores bruts ont été convertis en scores gradués (moyenne = 10; écart-type = 3) pour les deux sous-échelles de la motricité (motricité fine et motricité globale) alors que des scores standards (moyenne

= 100; écart-type = 15) ont été calculés le total des chacune des deux échelles (cognitive et motricité) en fonction des normes américaines, basées sur un échantillon représentatif de 1700 enfants âgés entre 0 et 43 mois. L'étude de fidélité de l'outil, réalisé auprès de 197 enfants américains a démontré de forts coefficients test-retest pour l'échelle cognitive ($r=0,71-0,86$), la sous-échelle de motricité fine ($r=0,67-0,88$) et la sous-échelle de motricité globale ($r=0,77-0,86$). De plus, ces échelles ont démontré une bonne validité convergente avec des outils de mesure reconnus. Ainsi, l'échelle cognitive est fortement corrélée avec le score global du Weschler Preschool and Primary Scale of Intelligence-Third Edition ($r=0,79$) et les deux sous-échelles de motricité sont modérément reliées avec les sous-échelles correspondantes du Peabody Developmental Motor Scales-Second Edition ($r=0,59$). L'étude de validité de l'outil auprès de 70 enfants avec un trouble envahissant du développement âgés entre 16 et 42 mois démontre que ces enfants performant significativement moins bien ($p<0,01$) sur toutes les échelles du *Bayley Scales of Infant and Toddler Development 3rd Edition* en comparaison à un groupe d'enfant apparié selon l'âge, ce qui correspond aux connaissances sur les troubles envahissants du développement (Bayley, 2006).

Comportements adaptatifs : L'échelle évaluant les comportements adaptatifs du *Bayley Scales of Infant and Toddler Development 3rd Edition* (Bayley, 2006) consiste en fait le formulaire pour parent/tuteur principal du *Adaptive Behavior Assessment System-II* (ABAS-II; Harrison & Oakland, 2003). La version francophone (Système d'évaluation du comportement adaptatif pour enfants de cinq ans et moins) ou anglophone a donc été complétée à chaque temps de mesure par les parents afin d'évaluer la participation de leur enfant dans différentes activités. Une vingtaine de minutes est nécessaire pour que les parents répondent aux 241 questions avec une échelle de Likert à quatre niveaux selon la fréquence à laquelle l'enfant manifeste correctement un comportement. Des scores standards (moyenne = 100; écart-type = 15) ont été calculés pour chacune des trois composantes (conceptuel, social et pratique) ainsi que pour le score total en fonction des normes américaines, basées sur un échantillon représentatif de 1350 enfants âgés de cinq ans et moins. Cet échantillon comprend 2,89% d'enfants avec un diagnostic clinique, incluant les TSA (0,14%), les troubles du langage (0,52%), les retards de développement (0,89%), les déficiences intellectuelles (0,30%) et d'autres diagnostics (Harrison & Oakland, 2003). L'étude de

fidélité de l'outil a démontré de forts coefficients test-retest ($r=0,86 - 0,92$) et interjuge ($r=0,82$) du score global (Bayley, 2006). De même, la forte corrélation avec l'échelle des comportements adaptatifs du *Vineland Adaptive Behavior Scale* ($r=0,70$) démontre une bonne validité convergente (Harrison & Oakland, 2003). Finalement, une étude de validité clinique auprès de 18 enfants avec un trouble envahissant du développement non spécifié et 34 enfants avec un trouble autistique, tous âgés entre trois et cinq ans, a démontré un niveau de fonctionnement réduit chez ces enfants en comparaison au groupe avec un développement typique. Ces difficultés au niveau des comportements adaptatifs sont notées pour l'ensemble des domaines évalués (tous les $p<0.01$ sauf $p=0,07$ pour les acquis préacadémiques chez les enfants avec un trouble autistique), avec une force relative au niveau des acquis préacadémiques, ce qui coïncide avec les connaissances sur l'impact des TSA (Rodrigue et al., 1990).

3.5.5 Outils de mesure de la validité sociale du programme

À titre de rappel, l'objectif exploratoire visait à explorer la validité sociale du programme d'accompagnement parental exprimé par les parents d'enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA y ayant participé. Il est à noter que la validité sociale réfère à la satisfaction et à l'acceptation d'une intervention habituellement collectées par l'entremise des personnes qui ont reçu et/ou implanté l'intervention (Goldstein & Naglieri, 2011). Selon cette définition, les outils de mesures utilisés pour documenter l'objectif exploratoire traitant de la validité sociale ont notamment inclus un court questionnaire quantitatif complété par l'ensemble des participants ainsi qu'une entrevue pour certains participants (voir section 4.6.5 Outils de mesure qualitatif).

Satisfaction parentale : La version francophone (Leichner & Perreault, 1990) ou anglophone originale (Attkisson & Zwick, 1982) du *Client Satisfaction Questionnaire – 8* (CSQ-8) a été complétée en post-intervention par les parents. Le CSQ-8 est une version abrégée de la version originale à 18 questions (Larsen et al., 1979). Il s'agit un outil de mesure de la satisfaction globale d'un client à l'égard des services qui lui sont offerts. Cette échelle comporte huit items cotés sur une échelle à quatre niveaux. Le score total varie entre huit et 32, où 32 représente le plus haut niveau de satisfaction. Le CSQ-8 est utilisé

fréquemment et a de bonnes caractéristiques psychométriques (Nguyen et al., 1983). Les études de validation faites sur la version canadienne-française de cette échelle ont donné des résultats similaires à ceux de la version originale (Perreault et al., 1992, 1993). La version originale en anglais a déjà été utilisée auprès des parents d'enfants avec un TSA pour explorer le niveau de satisfaction face à différentes interventions (Law et al., 2003; Schaaf et al., 2012).

3.5.6 Outils de mesure qualitative

Satisfaction, acceptabilité, recommandations et impacts : Une entrevue semi-dirigée d'une durée de 30 à 60 minutes a été réalisée auprès de six parents en personne (n=1) ou au téléphone (n=5), à la convenance du participant. Peu importe la modalité d'entrevue, toutes les entrevues ont été enregistrées à l'aide d'un magnétophone. Afin de limiter le biais de désirabilité sociale, les entrevues ont été complétées par une étudiante au doctorat formée et expérimentée en ce qui a trait à l'animation d'entrevues comme outils de collecte de données qualitatives qui n'était pas impliquée dans le présent projet de recherche. De plus, les familles étaient encouragées à être complètement honnêtes avec l'interviewer en ce qui concerne leur participation au programme d'accompagnement parental. Il était d'ailleurs souligné aux parents que leur rétroaction, tant positive que négative, était ainsi nécessaire afin d'améliorer le programme pour les prochaines familles.

Ces entrevues semi-dirigées suivaient un guide d'entretien ouvert. Le guide d'entretien (voir *Annexe 4 Guide d'entrevue*) comprenait ainsi les thèmes à aborder, une question d'ouverture ainsi que des questions d'approfondissements et une liste non exhaustive de techniques de facilitation pour encourager le parent à partager son expérience. Il est à noter qu'en fonction des propos des parents dans les premières entrevues, l'accent mis par l'interviewer s'est légèrement modifié. De fait, l'accent qui visait initialement à aborder la satisfaction des parents face à l'intervention, l'acceptabilité perçue du programme et leurs recommandations pour améliorer l'intervention a évolué au cours de la collecte de données. Ainsi, en plus d'aborder des thèmes tels que la pertinence perçue du programme, les aspects appréciés et à améliorer ainsi que les suggestions des parents, une importance particulière a été mise sur le vécu personnel des familles pendant leur participation au projet de recherche ainsi que les

impacts positifs et négatifs perçus par le parent sur lui-même et son enfant. Ainsi, l'entrevue qui se voulait initialement un moyen de collecter de l'information liée à l'objectif exploratoire qui réfère à la validité sociale du programme telle que perçue par le parent (ex. : la satisfaction des parents face à l'intervention, l'acceptabilité perçue du programme et leurs recommandations pour améliorer celui-ci) a finalement ratissé plus large. De fait, les sujets abordés par les familles permettent ainsi de confronter les résultats qualitatifs aux résultats quantitatifs pour davantage d'objectifs du présent projet de recherche, notamment en ce qui a trait à l'effet de l'intervention sur le bien-être parental.

3.6 Taille de l'échantillon

3.6.1 Taille d'échantillon pour l'essai randomisé croisé

Le calcul initial de la taille d'échantillon s'est basé sur l'amélioration estimée à la mesure principale, soit le score total à *Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* (Adamson et al., 2013). Selon les données d'Adamson et collaborateurs (2012), les valeurs moyennes pour les enfants neurotypiques étaient supérieures aux enfants avec un TSA (Adamson et al., 2012). Considérant que le TSA est caractérisé par des difficultés au niveau de la communication et des interactions sociales, il était estimé cliniquement significatif un changement permettant au groupe d'enfants à risque de TSA de rattraper légèrement l'écart déjà important avec leurs pairs en ce qui a trait à l'engagement conjoint dans l'interaction avec leur parent. En l'absence de données longitudinales spécifiques aux enfants avec un TSA, mais en considérant la quasi-stagnation développementale des enfants avec un TSA (Lord et al., 2012), il était anticipé qu'aucun changement notable n'allait être perçu chez les dyades parent-enfants avec un TSA ne recevant pas d'intervention. Avec cette hypothèse en tête, la candidate au doctorat a donc émis l'hypothèse qu'une différence totale de 8.5 points, correspondant à une différence moyenne de 0.5 point sur les 17 items à sept niveaux de l'*Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* était une cible raisonnable et significative. En effet, en fonction des données d'Adamson et collaborateurs (2012), une amélioration moyenne de 0.5 point aux 17 items équivaut à l'amélioration notée en cinq mois chez des enfants neurotypiques âgés entre 18 et 30 mois. Ainsi, une amélioration de cet ordre en trois mois chez des enfants à risque de TSA

permettrait de rattraper légèrement l'écart avec les enfants ne présentant pas de trouble développemental. Considérant une hypothèse primaire unilatérale (amélioration des interactions parent-enfant), une valeur de α de 0,05 et un β de 0,20, une différence de 8.5 points et un écart-type de 11.135 (écart-type provenant des données brutes transmises par L. Adamson à l'étudiante), la taille de l'échantillon requise était de 42 enfants, soit 21 enfants par groupe. Cette taille d'échantillon était conforme à ce qui est observé dans les études d'intervention antérieures dans lesquelles entre neuf et 49 enfants ont été randomisés dans chaque groupe (McConachie et al., 2005; Drew et al., 2002; Wong & Kwan, 2010; Landa et al., 2011; Carter et al., 2011; Rogers et al., 2012).

Considérant la nouveauté de l'outil de mesure (Adamson et al., 2013) et l'absence de données préliminaires sur l'effet d'un programme d'accompagnement parental sur la mesure principale, la candidate au doctorat a calculé à nouveau la taille d'échantillon requise afin de détecter un changement au score global à l'*Engagement State, Child and Caregiver Behavior and Shared Topic Rating* (Adamson et al., 2013) après l'intervention lorsque les trois premières familles ont complété l'intervention. Cette analyse intermédiaire a ainsi permis de raffiner la taille d'échantillon nécessaire en fonction de l'amélioration réelle des dyades parent-enfant ayant participé à un programme d'accompagnement parental. Une taille d'effet plus importante qu'anticipée a été observée à partir des données préliminaires auprès de ces trois familles. Ainsi, considérant une hypothèse primaire unilatérale (amélioration des interactions parent-enfant), une valeur de α de 0,05 et un β de 0,20, une différence de 14.66 points et un écart-type de 13.31, la taille de l'échantillon requise était alors de 16 familles, soit huit dyades parent-enfant par groupe pour détecter un changement entre les valeurs préintervention et post-intervention pour un échantillon apparié. Bien que nous n'anticipions pas un haut taux d'abandon, d'après ce qui est rapporté dans les études publiées sur l'accompagnement parental précoce (McConachie et al., 2005; Drew et al., 2002; Wong & Kwan, 2010; Rogers et al., 2012; Carter et al., 2011; Landa et al., 2011), 20 dyades parent-enfant étaient visées afin d'assurer la puissance nécessaire pour détecter les changements escomptés.

3.6.2 Taille d'échantillon pour l'entrevue qualitative

La taille du sous-échantillon pour compléter la partie qualitative de cette étude à devis mixte avait initialement été estimée à 15 participants sur 46. Par contre, considérant la taille d'échantillon plus petite que prévu pour la partie quantitative (19 plutôt que 46), la taille du sous-échantillon pour compléter l'entrevue a également été réévaluée. Plus précisément, en fonction des propos rapportés par les participants dans les entrevues, il a été jugé suffisant de compléter six entrevues. En effet, à la lecture des verbatim, il a été jugé par l'interviewer et l'intervenante principale que la saturation des données avait été atteinte après six entrevues. La portée limitée de l'entrevue ayant pour but de compléter et moduler les résultats quantitatifs ainsi que l'homogénéité de l'expérience vécue par les familles (malgré un effort pour recruter des cas diversifiés) a sans doute contribué à atteindre une saturation des données plus rapidement qu'anticipée initialement (Ryan & Bernard, 2003).

3.7 Analyse des données

3.7.1 Analyses des données caractérisant l'échantillon

Des analyses descriptives pour les variables continues (médiane et étendue) et ordinales (fréquence et pourcentage) ont été effectuées sur les variables sociodémographiques pour l'ensemble de l'échantillon ainsi que séparément pour les deux groupes. De plus, la similarité des deux groupes, avant l'intervention, a été vérifiée pour les variables sociodémographiques à l'aide de tests statistiques pour variables indépendantes non paramétriques, soit des tests U de Mann-Whitney pour les variables continues et des tests de χ^2 pour les variables continues.

3.7.2 Analyses des données quantitatives

Les analyses quantitatives ont été effectuées avec le logiciel *SPSS*. Considérant la taille d'échantillon limitée ($n=19$) et la distribution des données ne suivant pas une distribution normale, des analyses non paramétriques ont été effectuées sur les différentes variables quantitatives.

Des analyses descriptives pour les variables continues (médiane et étendue) et ordinales (fréquence et pourcentage) ont été effectuées sur les résultats aux différentes évaluations

pour l'ensemble de l'échantillon ainsi que séparément pour les deux groupes, et ce, aux différents temps de mesure.

Pour répondre à l'objectif principal ainsi qu'aux objectifs secondaires qui étaient d'évaluer les effets de l'intervention respectivement sur l'interaction parent-enfant (objectif primaire) ainsi que sur le bien-être parental (objectif secondaire #1) et le développement de l'enfant (objectif secondaire #2), des analyses inférentielles ont ensuite été effectuées. À l'instar de ce qui a été fait par Wong et Kwan dans une étude portant sur l'effet d'une intervention d'accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA avec un devis croisé similaire, l'analyse de données s'est déroulée en deux grandes étapes (Wong & Kwan, 2010). Ce processus d'analyse en plusieurs étapes a ainsi permis de profiter pleinement du devis quantitatif, incluant un groupe contrôle (Groupe 2 : Liste d'attente) qui devait attendre trois mois avant de recevoir l'intervention. Alors que la première portion de l'analyse des données quantitatives a permis de comparer l'effet de l'intervention (Groupe 1 : Intervention) à l'effet de maturation (Groupe 2 : Liste d'attente), la deuxième portion de l'analyse quantitative a permis d'augmenter la taille d'échantillon en combinant les deux groupes afin de juger de l'effet de l'intervention et de son maintien jusqu'à trois mois après la fin de l'intervention. Le tableau 9 résume la démarche d'analyse composée des deux grandes étapes (chacune incluant deux sous-étapes) qui a été utilisée pour répondre aux objectifs primaires et secondaires de cette thèse.

Tableau 9
Processus d'analyse des données quantitatives

| Étapes d'analyse | Tests statistiques |
|---|--|
| <i>1. Analyse de l'évolution entre T1 et T2 pour les deux groupes</i> | |
| 1.1 Analyse séparée de l'évolution des deux groupes ($\Delta T1-T2$) | • Test des rangs signés de Wilcoxon |
| 1.2 Analyse comparative de l'évolution entre les deux groupes ($\Delta T1-T2$) | • Test U de Mann-Whitney |
| <i>2. Analyse des résultats préintervention, post-intervention et au suivi en combinant les deux groupes</i> | |
| 2.1 Analyse comparative de l'effet de l'intervention entre les deux groupes ($\Delta \text{Pré-Post}$) | • Test U de Mann-Whitney |
| 2.2 Analyse de l'effet de l'intervention et du maintien au suivi avec un seul groupe ($\Delta \text{Pré-Post-Suivi}$) | • ANOVA non paramétrique de Friedman • Tests des rangs signés de Wilcoxon |

Analyse de l'évolution entre T1 et T2 pour les deux groupes

Premièrement, la candidate au doctorat a analysé l'évolution des scores permettant de quantifier l'interaction parent-enfant, le bien-être parental et le développement de l'enfant (voir section 4.6 *Outils de mesure* pour plus de détails sur les différentes mesures utilisées) entre le premier (T1) et le deuxième (T2) temps d'évaluation en fonction des groupes. Pour cette première grande section des analyses quantitatives, deux sous-étapes ont été complétées afin d'avoir un portrait le plus juste possible de l'évolution des variables primaires et secondaires au cours des trois premiers mois de suivi. Ainsi l'étape 1.1 rapportée dans le tableau 9 consistait à analyser de façon séparée l'évolution des deux groupes au cours des trois premiers mois de suivi. Les tests des rangs signés de Wilcoxon ainsi effectués séparément pour chaque groupe de randomisation permettaient de documenter l'effet direct de l'intervention sur les interactions parent-enfant, le bien-être parental et le développement de l'enfant pour les participants ayant eu accès du programme d'accompagnement parental à ce moment (Groupe Intervention) ainsi que l'effet de maturation naturel pour ceux n'ayant pas encore pu bénéficier de l'intervention (Groupe Liste d'attente). Par la suite, l'étape 1.2 incluait la réalisation de tests U de Mann-Whitney afin de comparer si l'effet d'intervention (Groupe Intervention) était différent de l'effet de maturation (Groupe Liste d'attente). Pour l'ensemble de cette grande section, une hypothèse unilatérale (amélioration) était mise de

l'avant en ce qui a trait à l'interaction parent-enfant et au développement de l'enfant. Par contre, considérant que le programme d'accompagnement parental ne ciblait pas directement le bien-être parental (Bearss et al., 2015a), une hypothèse bilatérale a été utilisée pour ce qui est de l'objectif secondaire qui consistait à documenter les effets de l'intervention sur le stress parental et le sentiment de compétence parentale. De fait, l'effet du temps sur le bien-être parental est peu documenté et pourrait s'améliorer ou se détériorer en fonction du stade d'acceptation et des stratégies d'adaptation des parents (Kübler-Ross, 1969; Negri & Castorina, 2014). Similairement, en fonction des données antérieures, l'augmentation du fardeau pour les parents participant au programme d'intervention pourrait augmenter le stress parental (Drew et al., 2002; Kasari et al., 2014; Wong & Kwan, 2010).

Analyse des résultats préintervention, post-intervention et au suivi en combinant les deux groupes

Deuxièmement, la candidate au doctorat a analysé l'évolution des scores aux différentes mesures quantifiant l'interaction parent-enfant, le bien-être parental et le développement de l'enfant en combinant les deux groupes en un seul groupe lorsque possible. De fait, considérant que tous les participants ont reçu le programme d'accompagnement parental soit directement après le recrutement (Groupe Intervention) ou trois mois après le début de leur suivi (Groupe Liste d'attente), il était possible de combiner tous les participants en un seul groupe pour augmenter la puissance statistique si les deux groupes évoluaient de la même façon lors de l'intervention (Wong & Kwan, 2010). Ainsi, en comparant l'effet de l'intervention (changement entre les scores préintervention et post-intervention) sur les deux groupes via un test U de Mann-Whitney, l'étape 2.1 permettait de vérifier ce postulat. Si la valeur p bilatérale du test U de Mann-Whitney était inférieure à 0.05, alors il était impossible de compléter la dernière étape de l'analyse. Au contraire, les variables pour lesquels la différence (hypothèse bilatérale) était non-significative étaient considérées comme évoluant de façon similaire et pouvaient ainsi être combinés pour des analyses supplémentaires. Lorsque possible, l'étape 2.2 consistait donc à faire combiner l'ensemble des participants en un seul groupe en regroupant les mesures prises immédiatement avant l'intervention (T1 pour le Groupe Intervention; T2 pour le Groupe Liste d'attente), après l'intervention (T2 pour le

Groupe Intervention; T3 pour le Groupe Liste d'attente) et au suivi trois mois après la fin de l'intervention (T3 pour le Groupe Intervention; T4 pour le Groupe Liste d'attente). Voir *Figure 3 Déroulement de l'étude* pour une illustration des différents temps de mesures. À cette étape, une ANOVA non paramétrique de Friedman a été effectuée pour les mesures qui ont pu être combinées en un seul groupe. Cette analyse permettait de détecter un changement à n'importe quel moment dans le processus (pré, post ou suivi) sur l'interaction parent-enfant, le bien-être parental et le développement de l'enfant. Il est toutefois important de noter que ce test statistique considère uniquement les observations complètes, c'est-à-dire les participants pour lesquels des données ont été collectées aux trois temps de mesure. Ainsi, la taille d'échantillon pour conduire l'ANOVA de Friedman était considérablement réduite. Afin de pallier à cette limite, des tests des rangs signés de Wilcoxon ont également été effectués en pairant les différents temps de mesure, soit en explorant la présence de changements lors de l'intervention (préintervention vs post-intervention), de la maintenance (post-intervention vs suivi trois mois), et de l'ensemble du processus (préintervention vs suivi). Pour cette dernière étape, la correction de Bonferroni a été appliquée aux résultats pour ajuster à une augmentation de l'erreur de type 1 due à de multiples comparaisons. Ainsi, pour les tests de Wilcoxon, une valeur d'alpha de moins de 0.0167 ($0.05/3$) était considérée comme statistiquement significative.

Malgré le désir de contrôler pour des facteurs tels que l'âge, le sexe, le résultat initial de la mesure et d'autres variables potentiellement confondantes comme les variables qui diffèrent lors de l'analyse préintervention, les analyses non paramétriques réalisées dans cette étude ne permettent pas de prendre en considérant de tels facteurs potentiellement confondants.

Pour répondre à l'objectif exploratoire concernant la validité sociale du programme d'intervention tel que perçu par les parents, des analyses descriptives incluant le mode, la médiane et l'étendue des réponses au questionnaire de satisfaction complété à la fin de l'intervention ont été effectuées.

3.7.3 *Analyses des données qualitatives*

L'analyse des données provenant des entrevues semi-dirigées individuelles a été effectuée par catégorisation des thèmes émergents en fonction des trois phases proposées par Miles, Huberman et Saldana (2014), soit la condensation des données, la présentation des données ainsi que l'élaboration et la vérification des conclusions. Ces différentes phases ont été réalisées par deux évaluatrices, soit la thérapeute principale (et candidate au doctorat) et l'interviewer (étudiante au doctorat, externe au projet de recherche). La thérapeute principale avait une forte connaissance du programme d'intervention et de la majorité des familles ayant participé au projet de recherche ainsi que du sous-échantillon ayant complété les entrevues individuelles. De son côté, l'interviewer avait l'avantage d'avoir fait les entrevues avec les participants ce qui apportait des nuances difficilement notables dans des verbatim, particulièrement en ce qui a trait aux émotions et non-verbal du parent. De plus, tel que décrit précédemment, l'interviewer apportait également un point de vue plus externe alors que la thérapeute avait une vision participative dans le programme d'intervention. De cette façon, l'apport des deux évaluatrices à chacune des étapes du processus d'analyse qualitative était essentiel afin d'assurer une analyse rigoureuse et en profondeur des données.

Avant d'entamer la phase de condensation des données, l'ensemble des entrevues ont été transcrites sous format de verbatim dans le logiciel *NVivo10*. Dans un premier temps, des unités de sens ont été extraites des textes disponibles (Rossman & Rallis, 1998). Puis, la thérapeute principale a alors attribué un ou plusieurs codes aux différents segments du verbatim par catégorisation mixte. Cette catégorisation mixte était d'abord basée sur le modèle logique présenté précédemment auquel la thérapeute ajoutait, modifiait ou éliminait des concepts, au besoin, en fonction des propos des parents. Une attention particulière a été portée afin de privilégier l'utilisation des termes utilisés par les parents pour servir d'étiquette aux catégories émergentes (Creswell, 2013). Considérant que la grille d'analyse a évolué au fil du processus de condensation des données, cette première évaluatrice a mis de l'avant un processus itératif en analysant à plusieurs reprises chacune des entrevues, raffinant en même temps la grille d'analyse. Une fois cela fait, elle a transmis à l'interviewer la grille d'analyse modifiée à l'interviewer ainsi que tous les verbatim. L'interviewer a donc fait un co-codage de l'ensemble des données sans avoir accès au codage de la thérapeute afin d'assurer une

interprétation optimale de la réalité transmise par les parents via les entrevues. L'interviewer pouvait, encore à cette étape, modifier la grille d'analyse au besoin. Une discussion a ensuite été effectuée entre les deux évaluatrices afin d'obtenir un consensus et résoudre toute divergence en ce qui a trait à la liste de codes, leurs définitions et les extraits de verbatim s'y rapportant. De plus, une attention particulière a été portée à cette étape afin de faire ressortir les similitudes et différences dans les propos des parents (analyse intracas) et entre les participants (analyse intercas) (Miles et al., 2014).

Par la suite, les deux évaluateurs ont mis de l'avant leur compréhension de la perspective des parents face au programme d'intervention en mettant en lumière les liens entre les concepts rapportés par les parents (Miles et al., 2014). Dans cette étape de présentation des données, le but était ainsi d'obtenir une compréhension plus approfondie et contextualisée du vécu de chaque famille en prenant la peine de valider la compréhension des données par des discussions avec l'équipe de recherche.

Finalement, la dernière étape consistait à élaborer et vérifier les conclusions de l'analyse des données qualitatives (Miles et al., 2014). Cette validation a été effectuée via un retour aux verbatim originaux, des discussions avec l'équipe de recherche et la confrontation des résultats aux études antérieures afin d'assurer la crédibilité des résultats.

3.7.4 Intégration des données quantitatives et qualitatives

Considérant que cette thèse utilise un devis mixte de type séquentiel explicatif, l'analyse des données quantitatives et qualitatives s'est déroulée séparément (Creswell, 2013). Ainsi, la première phase d'analyse effectuée dans cette thèse incluait l'analyse des données quantitatives telle que décrite à la section 4.7.2 *Analyse des données quantitatives*. Par la suite, une deuxième phase d'analyse qui consistait à faire l'analyse thématique des données qualitatives décrite à la section 4.7.3 *Analyse des données qualitatives* a été réalisée. À la suite de ces deux phases d'analyse, une troisième phase d'interprétation essentielle a été effectuée afin d'explorer comment les résultats qualitatifs permettent d'expliquer plus en profondeur les résultats quantitatifs (Creswell, 2013).

La candidate au doctorat a ainsi mis l'accent sur la mise en relation des résultats quantitatifs et qualitatifs. De fait, tel que proposé par Creswell (2013), la phase d'intégration des données quantitatives et qualitatives s'est concentrée sur l'apport des données qualitatives afin d'élargir ou d'expliquer les résultats quantitatifs. Pour ce faire, une attention particulière a été portée sur les données qualitatives afin qu'elles viennent expliquer les résultats significatifs, non significatifs et aberrants de la première phase quantitative (Briand & Larivière, 2014)

3.8 Considérations éthiques

Le protocole de recherche du présent projet de recherche a été approuvé par le comité d'éthique de la recherche chez l'humain du Centre de recherche du CHUS (#13-117) à l'été 2013. Considérant le volet multicentrique du projet, les convenances institutionnelles ont également été obtenues auprès de l'ensemble des institutions impliquées dans le projet de recherche tel que rapporté dans le tableau 5 de la section *4.2 Participants*.

Pour l'ensemble des 19 familles ayant participé au projet de recherche, deux formulaires de consentement présentant le déroulement du projet, la nature de la participation, les risques, inconvénients et avantages, ainsi que la nature volontaire du consentement ont été signés par les parents. De fait, les parents ont accepté la participation de leur enfant au projet de recherche, puis ils ont également signé un deuxième formulaire de consentement concernant leur propre participation au projet de recherche. Les participants au projet de recherche avaient en tout temps le droit de se retirer de l'étude, et ce, sans avoir à expliquer la raison de leur retrait.

Sachant que les enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA reçoivent peu de services, ce programme d'accompagnement parental répondait à un besoin de prise en charge rapide des enfants dès les premières préoccupations afin de favoriser leur pronostic et d'offrir des informations et du soutien aux parents. Ainsi, les avantages à la participation à l'étude incluaient une prise en charge rapide, une approche centrée sur la famille, une faible intensité d'intervention avec des intervenants et des gains développementaux potentiels pour l'enfant. De plus, les parents qui ont participé à un projet similaire à Ottawa ont rapporté de hauts taux

de satisfaction et de confiance, favorisant le maintien des participants dans le projet (Gaines et al., 2011).

Considérant que la participation des enfants au projet de recherche impliquait des risques de fatigue et de stress pendant et après les séances d'évaluation et d'intervention, le temps avec l'enfant a été limité à douze séances d'intervention hebdomadaires d'environ heure ainsi qu'à trois ou quatre évaluations d'une durée maximale de 75 minutes. Également, la réalisation des interventions dans le milieu naturel de l'enfant avait pour but de réduire le stress vécu par l'enfant.

Une attention particulière a été portée sur le plan éthique quant aux effets potentiellement négatifs d'une intervention demandant la participation active des parents en période de préoccupations face au développement de leur enfant. Étant conscients que la période dans laquelle les familles sont recrutées correspond à une période de stress et de vulnérabilité importante, les intervenants ont pris le temps d'expliquer le programme aux parents, d'écouter leurs inquiétudes et de répondre à leurs questions. De plus, afin d'éviter d'ajouter un fardeau aux parents, les intervenants mettaient l'accent sur l'intégration au quotidien des stratégies discutées dans les séances d'intervention. En effet, ce programme d'accompagnement parental ne visait pas à faire des parents des thérapeutes, mais plutôt à les outiller pour interagir de façon optimale avec leur enfant, sans exiger de passer plus de temps avec leur enfant. Le but étant plutôt d'optimiser les moments d'interaction déjà existants entre le parent et son enfant afin de stimuler le développement de l'enfant. Finalement, les thérapeutes expliquaient également à tous les parents que ce programme s'adresse aux familles qui ont des inquiétudes face au développement d'un jeune enfant. Ainsi, peu importe le diagnostic final (ou l'absence de diagnostic) que l'enfant recevra lors de l'évaluation pédopsychiatrique, l'implantation des stratégies de ce programme est adéquate. En effet, ce programme ciblait des symptômes et difficultés dans les sphères cognitives, communicatives et émotionnelles et non pas un diagnostic spécifique.

De plus, les familles dont leur domicile était situé à l'intérieur d'un périmètre de 20 kilomètres d'un CSSS collaborateur où l'équipe de recherche avait accès à un local devaient

se déplacer de trois à cinq fois à cet établissement pour compléter les évaluations avec leur enfant. Une compensation financière de 15\$ par visite était alors offerte aux familles se déplaçant dans un établissement du réseau de santé et de services sociaux pour couvrir le surcroît pour ces familles, notamment le stationnement et le kilométrage. Considérant que les évaluations des familles n'ayant pas accès à un local dans un CSSS à moins de 20 kilomètres de leur domicile se faisaient directement à leur domicile, aucune compensation financière n'était offerte à ces familles pour les séances d'évaluation.

Chaque participant a été identifié par un code alphanumérique afin de conserver la confidentialité des données. La clé du code reliant le nom de l'enfant à son dossier de recherche a alors été conservée par la candidate au doctorat et thérapeute principale de manière sécuritaire.

CHAPITRE 4. RÉSULTATS

Les résultats du projet seront présentés par l'entremise de deux articles soumis à des revues scientifiques.

Premièrement, l'article 3 répond à l'objectif primaire et au deuxième objectif secondaire en utilisant uniquement les données quantitatives collectées via l'essai randomisé croisé. Plus précisément, cet article présente les effets du programme d'accompagnement parental sur : 1) l'engagement dyadique entre le jeune enfant à risque de TSA et son parent et 2) le développement des jeunes enfants au niveau des habiletés motrices, des habiletés cognitives et des comportements adaptatifs.

Deuxièmement, l'article 4 répond au premier objectif secondaire et à l'objectif exploratoire de la thèse, soit : 1) d'évaluer les effets du programme sur le bien-être parental et 2) d'explorer la validité sociale du programme exprimée par les parents y ayant participé. Pour avoir une compréhension approfondie de l'expérience des parents, les données quantitatives et qualitatives ont été intégrées et sont présentées dans ce dernier article.

Article 3

Avant-propos

Parent-mediated intervention increasing parent-child engagement and improving cognitive and behavioural outcomes of toddlers with autism spectrum disorder positive screening: A randomized crossover trial

Auteurs de l'article: BEAUDOIN, Audrée Jeanne, MESTARI, Zakaria, SÉBIRE, Guillaume, & COUTURE, Mélanie

Statut de l'article: soumis : Beaudoin, A.J., Mestari, Z., Sébire, G., & Couture, M. (soumis)
Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Research in Autism Spectrum Disorder*.

La contribution d'Audrée Jeanne Beaudoin pour le travail en lien avec cet article inclut: l'expérimentation auprès de la majorité des familles, la supervision de la collecte de données, l'analyse des données et la rédaction du manuscrit. Zakaria Mestari a participé à l'expérimentation alors que Guillaume Sébire et Mélanie Couture ont supervisés l'expérimentation et la rédaction du manuscrit.

Les trois coauteurs ont autorisé l'intégration de cet article dans la thèse d'Audrée Jeanne Beaudoin.

Résumé

Problématique : En participant à des programmes d'accompagnement parental, les parents développent leurs habiletés afin de stimuler le développement de leur enfant. **Méthode :** Considérant que l'effet médiateur potentiel des comportements des parents a été peu étudié, cette étude évalue les effets d'une intervention d'accompagnement parental pour des bambins (12 à 30 mois) ayant une suspicion de trouble du spectre de l'autisme sur les interactions parent-enfant et le développement de l'enfant. **Résultats :** Cet essai randomisé croisé souligne l'effet positif de l'intervention d'accompagnement parental sur l'engagement dyadique entre le parent et son enfant. De plus la participation à l'intervention stimule le développement de l'enfant tel que manifesté par une normalisation des habiletés cognitives, des habiletés motrices et des comportements adaptatifs en comparaison avec les pairs neurotypiques. **Conclusion :** Cette étude met en lumière des bénéfices plus grands sur les variables proximales, soit la façon donc le parent et l'enfant interagissent ensemble dans le jeu, comparativement aux variables plus distales liées à l'enfant.

Mots-clés : accompagnement parental, aidant, interaction parent-enfant, nourrisson, intervention précoce

Abstract

Background: By participating in parent-mediated interventions, parents develop skills to promote their toddler's development. **Method:** Knowing that the potential mediator role of parent's behavior has been poorly assessed, this study evaluates the effects of a parent-mediated intervention for toddlers (12-30 months) with a suspicion of autism spectrum disorder (ASD) on parent-child interactions and children development outcomes. **Results:** This crossover randomized trial highlights the positive effect of the parent-mediated intervention on parent-child dyadic engagement. Also, the participation to the intervention stimulates the child development that is manifested by a mild-to-moderate normalization of toddlers' cognitive abilities, motor skills and social adaptive behaviors compared to typically developing peers. **Conclusions:** This paper highlights greater benefits on proximal outcomes, specifically the way parent and child interact with one another in play compared to more distal child-related outcomes.

Keywords: parent coaching, caregiver, parent-child interaction, infant, early intervention

Now that it is possible to identify a child with autism spectrum disorder (ASD) in the first two years of life (Zwaigenbaum, 2005) efforts are being made to develop early effective interventions for toddlers at high risk of ASD. In this regard, it is important to underline that toddlers are more influenced by their caregivers than their peers, their learning is very contextualized, and they have less communication and symbolic skills than preschoolers (Zwaigenbaum et al., 2009). Thus, age-specific strategies have to be used to offer effective early intervention to these toddlers with a diagnosis or a suspicion of ASD (Rogers & Wallace, 2011) including parent involvement.

Parent-mediated interventions that focus on joint attention, imitation and play (Aldred, Green, & Adams, 2004; Carter et al., 2011; Drew et al., 2002; (Aldred, Green, & Adams, 2004; Carter et al., 2011; Drew et al., 2002; Green et al., 2010; Kasari, Gulsrud, Wong, Kwon, & Locke, 2010; Landa, Holman, O'Neill, & Stuart, 2011; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Oosterling et al., 2010) can capitalize on teachable moments as they occur, provide learning opportunities during daily routines, and facilitate the generalization of learned skills across environments (Zwaigenbaum et al., 2015). Based on Bearss and colleagues' (2015) taxonomy, parent-mediated interventions for core symptoms of ASD “are *technique-focused* interventions where the parent is the agent of change and the child is the *direct* beneficiary of treatment” (Bearss, Burrell, Stewart, & Scahill, 2015). In other words, parents are taught how to promote social interaction, communication, imitation and play skills to stimulate their child development (Bearss et al., 2015). Based on this definition, parent-mediated intervention for core symptoms are well suited for targeting young children with ASD (Rogers & Wallace, 2011). In fact, they are based on the assumption that parents will implement within their daily interaction with their child strategies learned through the intervention, which will increase the time the child is stimulated in his natural environment and optimize the opportunity to simulate their child's socio-communicative skills in his daily routines (Siller, Hutman, & Sigman, 2013). Moreover, it seems that children with ASD who have communication skills below 12 months of developmental age may benefit more from these parent-mediated interventions (Siller et al., 2013), highlighting the needs for these types of intervention in toddlers at high risk of ASD.

Knowing that parents are the primary actors of parent-mediated interventions ((Ingersoll & Wainer, 2013; Koegel, Bimbela, & Schreibman, 1996), the potential mediator role of parents' behavior in the improvements of children's behavior should be assessed. Thus, the exploration of proximal outcomes including parent's behavior within the parent child dyad offers possibilities to gain a better understanding of the mechanism of change of parent-mediated interventions that ultimately aims to decrease core ASD symptoms in toddlers. Although several articles reported the effects of parent-mediated intervention for toddlers with ASD on parent-child interactions, most studies reported a trend toward an amelioration of the interaction, but insufficient to reach statistical significance (Carter et al., 2011; Green et al., 2013, 2015; Gulsrud, Jahromi, & Kasari, 2010; Kasari et al., 2014, 2010; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Vismara, Colombi, & Rogers, 2009), to no difference (Oosterling et al., 2010). Moreover, previously published studies mostly used different tools to assess parent behaviors and child behaviors during interactions (Beaudoin, Sébire, & Couture, 2014) rather than using a tool that assess simultaneously the parent's and child's influence highlighted by the transactional process in which each partners' behavior influence the other's (Sameroff, 1993). Considering the current limitations in published articles on parent-child issues and the inconclusive results on child developmental outcomes (Beaudoin et al., 2014) this study aims to evaluate the effects of parent-mediated intervention for toddlers with a suspicion or a diagnosis of ASD on quality of parent-child interactions and children developmental outcomes using a crossover randomized controlled trial.

Methods

Procedures

Study procedures were approved by the Research Ethic Board of the Research Center of the [Name of the Institution]. Potential participants aged between 12 and 30 months who were suspected of ASD were referred to the research team by community health care services or by a regional screening program for ASD from July 2013 to March 2016. After reference, all families completed an eligibility screening questionnaire, the *Infant-Toddler Checklist* (Wetherby, Brosnan-Maddox, Peace, & Newton, 2008) for children aged between 12 and 17 months or the *Modified Checklist for Autism in Toddlers – Revised* (Robins et al., 2014) for

children aged between 18 and 30 months. All potential participants who scores at risk of ASD on the screening questionnaire then completed the *Autism Diagnosis Observation Schedule – Toddler Module* (Luyster et al., 2009) and the *Autism Diagnostic Interview – Revised* (Rutter, Le Couteur, & Lord, 2003). If eligibility criteria were met (i.e. children aged between 12 and 30 months, children scored at risk of ASD based on these gold standard measures, parents understanding and speaking English or French adequately to benefit from the intervention whereas another language could be used predominantly at home) families were invited to participate in the parent-mediated intervention.

After the initial assessment, the main therapist opened in front of parents the envelope corresponding to the number allocated to the participant. Thus, families were randomly assigned either to the Intervention Group, which would receive the parent-mediated intervention right away or the Waitlist Group that had to wait three months before getting access to the parent-mediated intervention. The randomization was done in blocks of four based on the age of the child at recruitment (12-17 months; 18-30 months). Based on sequentially numbered envelopes prepared before the start of the study via a random number table, for every 4 participants recruited in each age group, two of them were randomized in the Intervention Group and the two others in the Waitlist Group. Depending on group allocation, participants completed three (Intervention Group) to four (Waitlist Group) assessment times, each of them approximately three months apart. See Figure 1 for more details on the evaluation timeline.

Intervention

Parent-mediated intervention

The 12-session parent-mediated intervention was done at home with the therapist, at least one parent and the child with a diagnosis or a suspicion of ASD. Sessions were all videotaped to code parent and child behaviors.

The parent-mediated intervention offered was an adaptation of the parent delivery of the Early Start Denver Model (P-ESDM; Rogers, Dawson, & Vismara, 2012). The original ten P-ESDM sessions were combined to two additional sessions (first and fourth sessions) based

on the Social Communication Emotion Regulation Transaction Support (Prizant, Wetherby, Rubin, & Laurent, 2003) that focused on emotion regulation. These additions highlighted the recognition of children arousal state, potential threats to emotion regulation, and ways to optimize their availability before and during parent-child interactions. All 12 intervention sessions were structured on the P-ESDM's 5-step procedure, including 1) a discussion on the past week with the parent and the therapist, 2) a 10-minute free play period between the child and his parent that provided data on parent-child interactions and parent's use of strategy, 3) the introduction of a new strategy by the therapist using discussion, written handout and examples, 4) an opportunity for parents to practice the strategy with feedback from the therapist, and 5) a final discussion about the possibilities for parents to practice the strategy in the next week during routines with their child (Rogers, Estes, et al., 2012; Vismara et al., 2009; Vismara & Rogers, 2008). Any other parental concerns were also addressed during the intervention sessions. When parents reported concerns or asked questions that were not planned in the parent-mediated intervention, the therapist took time to give information or refer parents to other resources, if available. Most intervention sessions lasted between 45 and 90 minutes, depending on concerns and questions raised by parents.

Two therapists offered the intervention to the 19 families. The main therapist (n=16 families, 84%) received initial training in the use of the ESDM and assisted to a workshop on a Quebec adaptation of the SCERTS model. Based on her experience, the leading therapist adapted the parent-mediated intervention and created a complete intervention manual. The other therapist (n=3 families, 16%) previously trained to the ESDM, was also trained by the main therapist to ensure the reliability of the adapted parent-mediated intervention.

Parents were encouraged to use the strategies in their daily routines with their child. However, there was no requirement in time, frequency or period that parents should implement these strategies. Parent's implementation of strategy during a 10-minute free play videotapes between the child and his parent at each assessment times has been coded with the *ESDM Fidelity Checklist* (Rogers & Dawson, 2010) by the main therapist. Results reported in the percentage of implementation indicate the level to which parents used the different strategies of the *ESDM* in their interactions with their child. Based on these results,

a significant increase in the Intervention Group (median change: 10.3; $p=.006$, $ES=.81$), but no change in the Waitlist Group (median change: -1.5; $p=.922$; $ES=.04$) were observed between Time 1 and Time 2. The difference noted in the Intervention Group was statistically greater than the evolution observed in participants waiting for services during the same period, as reported by Mann-Whitney U test comparing changes in both groups between Time 1 and Time 2 ($p=.013$; $ES=.51$). Globally, parents implemented strategy with a median score of 68.5% after the intervention, compared to 58.5% before receiving information from the therapist. Remarkably, the improvement noted during the intervention period is maintained at follow-up (post – follow-up median change: -1.9; $p=.878$, $ES=.05$). Also, as reported in Table 1, only participants who had received the intervention reached the fidelity threshold for trained therapists (i.e. 80% of strategy's implementation).

Table 1
Parents' fidelity of implementation

| | Intervention Group (n=9) | | Waitlist Group (n=10) | | Total (n=19) | |
|--------------------------------|-------------------------------------|-----------------------------|----------------------------------|-----------------------------|-------------------------|-----------------------------|
| | median score (range) | n (%) of score ≥ 80 | median score (range) | n (%) of score ≥ 80 | median score (range) | n (%) of score ≥ 80 |
| 1 st baseline | -- | -- | 60.0 (35.4; 70.8) | 0 (0%) | 60.0 (35.4; 70.8) | 0 (0%) |
| Pre-intervention | 56.2 (45.4; 73.1) | 0 (0%) | 58.5 (36.9; 77.7) | 0 (0%) | 58.5 (36.9; 77.7) | 0 (0%) |
| Post-intervention ¹ | 68.5 (47.7; 87.7) | 2 (22%) | 67.7 (49.2; 83.1) | 1 (11%) | 68.5 (47.7; 87.7) | 3 (17%) |
| Follow-up ² | 64.6 (43.1; 89.2) | 1 (14%) | 70.8 (52.3; 93.8) | 2 (40%) | 68.5 (43.1; 93.8) | 3 (25%) |

¹ Post-intervention assessment: n=18 in total sample (n=9 in the Intervention Group; n=9 in the Waitlist Group)

² Follow-up assessment: n=12 in total sample (n=7 in the Intervention Group; n=5 in the Waitlist Group)

Treatment as usual

Participants were encouraged to use other services available as they would have done if not participating in the research project. However, all families that participated in the study were waiting for public-funded intensive behavioral intervention and thus, received very few, if any, public-funded services. In fact, no families were receiving intensive early intervention at the time of recruitment, and only two of them started intensive early intervention during the follow-up period. Private services (e.g. intensive early intervention, speech and language pathologist, occupational therapy) could also be used by any families who could afford the

cost associated with these services, but only two families purchased services from a speech and language pathologist.

Globally, during the first three months, families received a median of 0 hour/week of other interventions ranging from 0 to 2.5 hours/week in the Intervention Group and from 0 to 1 hour/week in the Waitlist Group. Interventions that were most popular included early stimulation groups (n=4; from 0.5 to 1.5 hour/week), speech and language pathology (n=3; from 0.2 to 1 hour/week), and babysitting services (n=2; from 0.6 to 0.8 hours/week).

Data collection

Assessments were completed either at home (n=5; 26.3%) or in a clinical setting (n=14; 73.7%), depending on the proximity of clinical settings to the families' home (i.e. if families' home were at 20 kilometers or less of one of the clinical setting). No matter the context in which data collection took place, all families completed the same assessment procedures, including observational measures of parent-child interactions in a free play period, a direct assessment of children cognitive and motor development, and a parent-reported questionnaire on their child adaptive behaviors.

Parent-child observation measures

The primary outcome was the quality of dyadic engagement between the child and his parent as measured by the total score of the *Engagement state, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* (Adamson, Bakeman, Deckner, & Nelson, 2013). Based on Adamson's and colleagues protocol (Adamson et al., 2013), four cluster scores were also analyzed, which are 1) Child Joint Engagement, 2) Child Behavior, 3) Caregiver Behavior, and 4) Shared Topic. Originally developed to be used with structured 6-minute play sessions in six different contexts (Adamson, Bakeman, Deckner, & Ronski, 2009; Adamson, McArthur, Markov, Dunbar, & Bakeman, 2001), the 17 items were used in this study to code a 10-minute unstructured play period between the child and his parent at each assessment time. This modification of the protocol was done with the approbation of the author of the assessment tool (L. Adamson). Previously used with children aged between 18 and 30 months with typical development, ASD and Down Syndrome the *Engagement State, Child and Caregiver*

Behavior and Shared Topic Rating can be used to evaluate the quality of dyadic engagement in parent-child interactions for toddlers with or without neurodevelopmental disabilities (Adamson, Bakeman, Deckner, & Nelson, 2012). The 10-minute play periods were coded by two evaluators blinded to group allocation and time of evaluation who then compared their scores. Excellent inter-rater reliability was achieved on the total score (ICC=.957) and each of the four subscales (ICC from .963 to .984). If a difference of more than 1 point on any of the 17 items rated on the 7-point Likert scale was reported between the two evaluators, they looked back at the videotaped play period and reached a consensus on these items.

Children's developmental measures

Secondary outcomes were related to children's development. These outcomes include cognitive abilities, motor skills, and adaptive behaviors all assessed via the *Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition* (Bayley, 2006), a widely used tool for early childhood assessment.

Cognitive and motor skills were assessed via direct evaluation with children through a standard set of age-appropriate activities. Whereas the first assessment was completed by the main therapist to know the child and facilitate individualization of care, all other assessment times were completed by one of two independent evaluators formerly trained to the *Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition* (Bayley, 2006). These evaluators were blinded to group allocation and time of assessment. Raw scores were converted into standard scores (mean = 100; standard deviation = 15) for both scales (i.e. cognitive abilities and motor skills) and into scaled score (mean = 10; standard deviation = 3) for the two subscales of motor skills (i.e. fine motor skills and gross motor skills) according to the aged-based norms available.

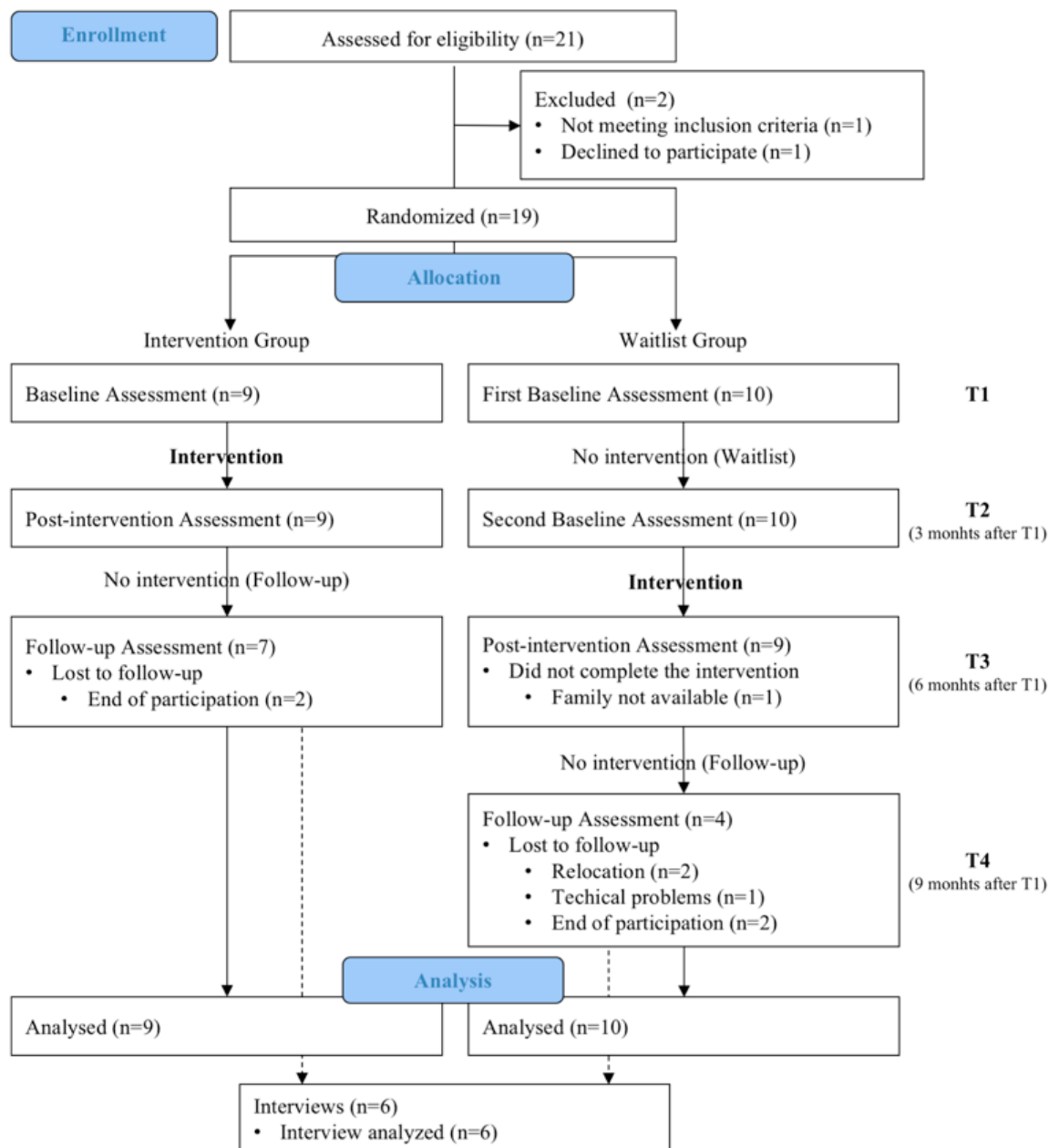
Parents completed the Primary Caregiver/Parent form of *Adaptive Behavior Assessment Scale – 2nd Edition* (Harrison & Oakland, 2003) for children from birth to 5 years that is included in the *Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition* (Bayley, 2006). In this questionnaire, parents indicated the extent to which the child performed a variety of adaptive behaviors on a 4-point Likert scale, from 0 (is not able) to 3 (always when needed). English

and French versions of the questionnaire were available for parents according to their preferred language. Results on the total score and three subscales (i.e. conceptual, social, and practical) were converted into standard scores (mean = 100; standard deviation = 15) according to the aged-based norms available.

Participants

19 parent-child dyads were included in this study. As reported in Figure 1, nine participants were randomized in the Intervention Group and ten were allocated to the Waitlist Group. One participant in the Waitlist Group did not complete the intervention and eight participants did not complete the follow-up assessment three months after the end of the intervention.

Figure 1
Flow Diagram



Data analysis

Planned data analysis for the total score, the four scale scores of the parent-child dyadic engagement (primary outcome) and child development (secondary outcome) included 2 major analysis pathways: (1) assessment of the intervention effect based on the comparison of the amplitude of change at T2 versus T1 between the Intervention and the Waitlist Group,

and (2) a combined analysis looking at the effect of time comparing scores at baseline, post-intervention and follow-up all participants merged in a single group, specifically for looking at the maintenance of effects at follow-up. Based on data distribution, non-parametric analyses were conducted. First, looking at the direct effect of intervention separately for both groups we conducted i) Wilcoxon signed-rank tests separately for both groups to evaluate if there was a significant change in parent-child interactions between T1 and T2 independently for the Intervention Group who received the intervention between these two assessments times and for the Waitlist Group that was waiting for the parent-mediated intervention and receiving care-as-usual, and ii) a Mann-Whitney U-test between groups to evaluate if change was greater in the Intervention Group than in the Waitlist Group during this 3-month interval. Second, considering that participants in the Waitlist Group received the parent-mediated intervention after T2, the research team conducted iii) a Mann-Whitney U-test on the difference score during the intervention period for the Intervention Group (T1 and T2) and the Waitlist Group (T2 and T3). If no significant difference was found between difference in score during the intervention period between groups, both groups were merged into a single and larger group and iv) a Friedman ANOVA and Wilcoxon signed rank tests with Bonferroni correction to adjust multiple comparisons (p-value for Wilcoxon signed rank test: $.05/3=.017$) were used for testing change in parent-child interactions between baseline, post-intervention and follow-up in the entire sample.

Results

Table 2 summarizes developmental status and sociodemographic data of both study groups. The groups were similar on all variables at baseline assessment. The total sample includes 15 boys (78.9%). Toddlers median age was 26 months (range: 13-30 months). The main caregiver involved in the parent-mediated intervention were mostly mothers (n=14; 73.7%). Caregivers median age was 36.1 years (range: 23.0-46.5). All participants were in the low-to-moderate (n=7; 36.2%) or moderate-to-severe (n=12; 63.2%) ADOS range-of-concern. Based on developmental assessments, toddlers included in the study have significant developmental delays, as indicated by median composite scores on the cognitive abilities (median score: 70; range: 55 - 95), motor skills (median score: 76; range: 55 - 103) and adaptive behaviors (median score: 65; range: 52 - 100). Sociodemographic data revealed that

most families participating in this study were in the low-to-moderate socioeconomic status with 14 families (73.7%) having a household income of less than \$65000 CAD and nine primary caregivers (47.4%) that is neither working nor studying. Also, participants come from various cultural background, including 8 families (42.1%) with a cultural background other than Canadian such as African (n=2; 10.5%), Arabic (n=2; 10.5%), Latin-American (n=3; 15.8%) and Russian (n=1; 5.3%) as well as 5 families (26.3%) primarily using a language other than French or English at home.

Table 2
Developmental status and sociodemographic data at baseline

| | Intervention Group (n=9) | Waitlist Group (n=10) | Between group comparison <i>p-value</i> |
|---|-----------------------------|--------------------------|---|
| <u>Children sociodemographics</u> | | | |
| Gender (boys) | 8 (88.9%) | 7 (70.0%) | .582 |
| Age (months) | 25 (16 - 30) | 26 (13 - 29) | .887 |
| Prematurity | 0 (0%) | 0 (0%) | 1.000 |
| <u>Family sociodemographics</u> | | | |
| Caregiver (mothers) | 8 (88.9%) | 6 (60.0%) | .303 |
| Age (years) | 35.5 (26.5 - 46.5) | 26.8 (23.0 - 39.3) | .704 |
| Number of children | 2 (1 - 4) | 2 (1 - 3) | .510 |
| Family income (< \$65000) | 7 (77.8%) | 7 (70.0%) | 1.000 |
| Occupation (working/studying) | 5 (55.6%) | 5 (50.0%) | 1.000 |
| Education (years) | 16 (12 - 21) | 16 (11 - 18) | .857 |
| Ethnicity (Caucasian) | 5 (55.6%) | 6 (60.0%) | .857 |
| Main language (French/English) | 6 (66.7%) | 8 (80.0%) | .628 |
| <u>Developmental status</u> | | | |
| Autism symptom severity (raw score /28) | 16 (10-21) | 19 (10-26) | .344 |
| Cognitive skills (standard score) | 70 (55-95) | 72.5 (55-85) | .982 |
| Motor skills (standard score) | 70 (58-97) | 76 (55-103) | .984 |
| Fine motor skills (scaled score) | 5 (2-11) | 5 (1-15) | .734 |
| Gross motor skills (scaled score;) | 5 (4-9) | 6 (4-7) | .853 |
| Adaptive behaviors (standard score) | 63.5 (53-100) | 66.0 (52-78) | 1.000 |
| Conceptual score (standard score) | 62.0 (57-97) | 65.0 (52- 90) | .683 |
| Social score (standard score) | 72.5 (56-99) | 74.0 (59-80) | .684 |
| Practical score (standard score) | 65.0 (55-105) | 71.5 (53-77) | .596 |

¹ Numerical data: Median (Range); Mann-Whitney U test

² Categorical data: Frequency (Percentage); Fisher exact test

Parent-child interactions

Comparison of Time 1 versus Time 2 differential for the Intervention Group and the Waitlist Group shows that the parent-child dyadic engagement significantly increased in the Intervention Group (median change: 10.50; $p=.010$, $ES=.77$) but not in the Waitlist Group

(median change: 6.88; $p=.250$; $ES=.40$) (Table 3). Results on three of the four subscales of the *Engagement state, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* indicate a similar trend, including changes in Joint Engagement (median change in the Intervention Group: 3.09 $p=.012$; $ES=.75$), Child Behavior (median change in the Intervention Group: 2.13 $p=.004$; $ES=.85$) and Shared Topic (median change in the Intervention Group: 2.54 $p=.004$; $ES=.84$) that are statistically higher at Time 2 compared to Time 1 in the Intervention Group, but not in the Waitlist Group. Despite significant changes noted in the Intervention Group between Time 1 and Time 2, this improvement in parent-child dyadic engagement in the Intervention Group is not statistically greater than the maturation effect seen in the Waitlist Group between Time 1 and Time 2 (p values from .179 to .453; effect sizes from .03 to .22) as reported in Table 4.

Table 3
Change in parent-child and children outcomes between T1 and T2 separately for both groups

| | Intervention Group (n=9) | | | Waitlist Group (n=10) | | |
|---|--------------------------|-------------------------|-----------------------------------|-------------------------|-------------------------|-----------------------------------|
| | T1 median (range) | T2 median (range) | <i>p</i> -value (ES) ¹ | T1 median (range) | T2 median (range) | <i>p</i> -value (ES) ¹ |
| Parent-child dyadic engagement (raw score /119) | 47.8 (33.8; 67.3) | 62.0 (36.0; 77.3) | .010* (.77) | 47.3 (26.5; 66.5) | 59.0 (30.3; 68.0) | .250 (.40) |
| Joint engagement (raw score /28) | 10.0 (8.0; 14.8) | 13.8 (8.0; 17.5) | .012* (.75) | 10.3 (5.0; 13.0) | 11.9 (6.8; 14.0) | .102 (.53) |
| Child Behavior (raw score /35) | 12.0 (7.5; 23.0) | 15.5 (9.5; 24.8) | .004* (.85) | 10.0 (7.0; 21.5) | 13.8 (7.0; 21.5) | .117 (.51) |
| Caregiver Behavior (raw score /28) | 17.5 (6.8; 23.3) | 21.0 (6.0; 24.0) | .172 (.34) | 19.5 (8.0; 23.0) | 20.8 (8.0; 23.0) | .813 (.11) |
| Shared Topic (raw score /28) | 8.2 (4.5; 13.3) | 11.0 (6.5; 15.0) | .004* (.84) | 6.8 (4.0; 11.0) | 9.5 (4.8; 11.3) | .250 (.40) |
| Cognitive abilities (standard score) ² | 70.0 (55; 95) | 75.0 (55; 115) | .086 (.47) | 72.5 (55; 85) | 65.0 (55; 90) | .109 (.45) |
| Motor skills (standard score) ² | 70.0 (58; 97) | 73.0 (58; 110) | .375 (.18) | 76.0 (55; 103) | 61.0 (55; 88) | .016* (.74) |
| Fine motor skills (scaled score) ² | 5.0 (2; 11) | 5.0 (1; 13) | .931 (.03) | 5.0 (1; 15) | 5.0 (1; 10) | .257 (.40) |
| Gross motor skills (scaled score) ² | 5.0 (4; 9) | 6.0 (4; 11) | .570 (.19) | 6.0 (4; 7) | 4.0 (4; 8) | .194 (.46) |
| Adaptive behaviors (standard score) ³ | 63.5 (53; 100) | 62.0 (45; 99) | .320 (.20) | 66.0 (52; 78) | 60.5 (53; 63) | .078 (.65) |
| Conceptual subscale (standard score) ³ | 62.0 (57; 97) | 64.0 (50; 99) | .203 (.32) | 65.0 (52; 90) | 64.0 (52; 79) | .375 (.17) |
| Social subscale (standard score) ³ | 72.5 (56; 99) | 72.5 (52; 105) | .422 (.29) | 74.0 (59; 80) | 62.0 (54; 71) | .031* (.84) |
| Practical skills (standard score) ³ | 65.0 (55; 105) | 61.5 (49; 98) | .137 (.42) | 71.5 (53; 77) | 66.0 (53; 71) | .094 (.61) |

ES: Effect size; * Significant change ($p < 0.05$)

¹ Wilcoxon signed-ranked test

² Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition: n=18 in total sample (n=9 in the Intervention Group; n=9 in the Waitlist Group)

³ Adaptive Behavior Assessment Scale – 2nd edition: n=14 in total sample (n=8 in the Intervention Group; n=6 in the Waitlist Group)

Table 4
Between groups comparison of parent-child and children change between T1 and T2

| | Intervention Group (n=9) | Waitlist Group (n=10) | Between group comparison |
|--|---|----------------------------------|-----------------------------------|
| | <u>median</u> Δ T1-T2 (range) | median Δ T1-T2 (range) | <i>p</i> -value (ES) ¹ |
| Parent-child dyadic engagement (raw score /119) | 10.500 (-4.50; 22.0) | 6.875 (-12.50; 22.50) | .221 (.19) |
| Joint engagement (raw score /28) | 3.085 (-2.0; 5.50) | 1.750 (-2.50; 4.50) | 1.000 (.00) |
| Child Behavior (raw score /35) | 2.125 (-0.75; 5.50) | 2.125 (-2.75; 8.00) | .673 (.12) |
| Caregiver Behavior (raw score /28) | 1.335 (-4.00; 9.25) | 0.250 (-13.0; 6.0) | .167 (.34) |
| Shared Topic (raw score /28) | 2.540 (0.25; 5.00) | 1.125 (-1.75; 5.00) | .050 (.45) |
| Cognitive abilities (standard score) ² | 5.0 (-15.0; 30.0) | 0.0 (-15.0; 15.0) | .182 (.22) |
| Motor skills (standard score) ² | 3.0 (-6.0; 16.0) | -6.0 (-15.0; 0.0) | .005* (.60) |
| Fine motor skills (scaled score) ² | 0.000 (-3.0; 4.0) | 0.000 (-5.0; 2.0) | .423 (.22) |
| Gross motor skills (scaled score) ² | 1.0 (-3.0; 4.0) | 0.0 (-3.0; 2.0) | .236 (.30) |
| Adaptive behaviors (standard score) ³ | -4.5 (-19.0; 12.0) | -6.0 (-16.0; 1.0) | .463 (.03) |
| Conceptual subscale (standard score) ³ | -5.0 (-18.0; 10.0) | -3.0 (-11.0; 12.0) | .342 (.12) |
| Social subscale (standard score) ³ | 1.0 (-14.0; 18.0) | -9.0 (-26.0; 0.0) | .053 (.45) |
| Practical skills (standard score) ³ | -7.0 (-16.0; 9.0) | -7.0 (-11.0; 7.0) | .489 (.01) |

Δ : Change; ES: Effect size; * Significant change ($p < 0.05$)

¹ Mann-Whitney U test

² Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition: n=18 in total sample (n=9 in the Intervention Group; n=9 in the Waitlist Group)

³ Adaptive Behavior Assessment Scale – 2nd edition: n=14 in total sample (n=8 in the Intervention Group; n=6 in the Waitlist Group)

Using a Mann-Whitney U test to evaluate the change from Baseline to Post-Intervention in the two groups, all participants evolve similarly regarding the parent-child dyadic engagement total score ($p=.083$) and the four parent-child interaction subscales (p values from .153 to .589) regardless of their group allocation. Thus, data from both groups were combined into a single group to analyze the effect of intervention and maintenance at follow-up with a larger sample size. The Friedman's non-parametric ANOVA (Table 5) shows no significant change when analyzing effect of the intervention on total parent-child dyadic engagement ($p=.256$) nor on any subscale of the *Engagement state, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* (p values from .062 to .265), at Baseline, Post-Intervention and Follow-Up for the 11 participants who completed all assessment times. However, Wilcoxon signed-rank tests with Bonferroni correction ($p\text{-value} < .017$) comparing assessment times 2x2 report a significant increase during the intervention period in parent-child dyadic engagement total raw score (median change=4.92; $p=.012$; ES=.51) and two of the four subscales, including Child Behavior (median change=1.75; $p=.016$; ES=.49) and Shared Topic (median change=1.46; $p=.005$; ES=.57). A moderate increase is also observed in the Joint Engagement subscale even though not statistically significant (median change=1.63; $p=.022$; ES=.46) during the intervention phase. At follow-up, no parent-child interaction outcomes significantly changes, A nonsignificant moderate increase in Caregiver Behavior subscale (median change=2.17; $p=.039$; ES=.63) was observed at 3 month follow-up compared to the baseline score.

Table 5
Evolution of children and parent-child outcomes for all participants (both groups merged)

| | Pre-int. (n=19) median (range) | Post-int. (n=16) median (range) | Follow-up (n=11) median (range) | Pre-Post-FU (n=11) <i>p-value</i> ¹ | Pre-Post (n=16) <u>median Δ</u> <i>p</i> (ES) ² | Post-FU (n=10) <u>median Δ</u> <i>p</i> (ES) ² | Pre-FU (n=11) <u>median Δ</u> <i>p</i> (ES) ² |
|---|--|---|---|---|--|---|--|
| Parent-child dyadic engagement (raw score /119) | 54.0 (30.3; 68.0) | 64.0 (31.5; 87.5) | 48.0 (27.5; 68.5) | .256 | 4.915 .012* (.51) | -5.125 .947 (.03) | 4.500 .320 (.32) |
| Joint engagement (raw score /28) | 10.8 (6.8; 14.8) | 13.8 (6.0; 17.5) | 11.0 (7.5; 18.0) | .265 | 1.625 .022 (.46) | -0.125 .313 (.32) | 1.250 .238 (.38) |
| Child Behavior (raw score /35) | 12.0 (6.8; 25.0) | 15.5 (3.3; 28.5) | 12.0 (7.5; 25.0) | .141 | 1.750 .016* (.49) | -1.250 .846 (.08) | -0.250 .043 (.61) |
| Caregiver Behavior (raw score /28) | 19.5 (6.8; 24.0) | 21.0 (6.0; 25.5) | 24.0 (6.5; 26.0) | .062 | 1.085 .212 (.19) | 1.250 .278 (.35) | 2.170 .039 (.63) |
| Shared Topic (raw score /28) | 8.5 (4.5; 13.3) | 11.3 (5.5; 17.0) | 8.0 (4.0; 17.0) | .071 | 1.460 .005* (.57) | 3.415 .155 (.44) | 0.330 .992 (.01) |
| Cognitive abilities (standard score) ³ | 67.5 (55; 95) | 77.5 (55; 115) | 80.0 (50; 95) | .011* | 5.000 .010* (.57) | 0.000 .633 (.17) | 5.000 .137 (.48) |
| Motor skills (standard score) ³ | 70.0 (55; 97) | 73.0 (55; 110) | 70.0 (55; 94) | .232 | 1.500 .071 (.38) | -6.000 .063 (.57) | -3.000 .328 (.33) |
| Fine motor skills (scaled score) ³ | 4.5 (1; 11) | 6.0 (2; 13) | 6.0 (1.0; 10) | .508 | 1.000 .132 (.28) | 0.000 .656 (.18) | 1.000 .992 (.01) |
| Gross motor skills (scaled score) ³ | 5.0 (4; 9) | 6.0 (3; 11) | 4.0 (2.0; 8) | .011* | 0.500 .116 (.31) | -1.000 .016* (.72) | -1.000 .133 (.47) |
| Adaptive behaviors (standard score) ⁴ | 64.0 (45; 100) | 62.0 (56; 99) | 60.0 (51; 89) | .932 | 0.000 .312 (.09) | 1.000 .719 (.16) | -1.000 .938 (.06) |
| Conceptual subscale (standard score) ⁴ | 66.0 (50; 97) | 65.0 (53; 99) | 69.0 (50; 99) | .477 | 2.000 .472 (.14) | 2.000 .344 (.38) | 4.000 .547 (.25) |
| Social subscale (standard score) ⁴ | 75.5 (52; 99) | 69.5 (62; 105) | 65.0 (59; 93) | .818 | 0.000 .205 (.06) | -3.000 .828 (.10) | -6.000 .570 (.22) |
| Practical skills (standard score) ⁴ | 68.0 (49; 105) | 66.0 (58; 98) | 65.0 (50; 79) | .989 | 0.000 .446 (.13) | 0.000 .406 (.15) | -3.000 .945 (.05) |

Δ: Change; ES: Effect size; * Significant change

¹ Friedman's non-parametric ANOVA test

² Wilcoxon signed-ranked test (Bonferroni correction)

³ Bayley Scales of Infant Development – 3rd edition: n=18 at pre-intervention; n=16 at post-intervention; n=11 at follow-up

⁴ Adaptive Behavior Assessment Scale – 2nd edition: ⁵n=14 at pre-intervention; ⁶n=13 at post-intervention; ⁷n=7 at follow-up

Children development

A trend toward the amelioration of cognitive abilities between T1 and T2 was observed in the Intervention Group (median change=5.0; $p=.086$) but not in the Waitlist Group (median change=0.0; $p=.109$) (Table 3). Interestingly, the stability observed in motor skills in the Intervention Group (median change=3.0; $p=.375$) is statistically different compared to the decreased in the Waitlist Group (median change=-6.0; $p=.016$) (Table 4). Similarly, the stability in social adaptive behaviors in the Intervention Group (median change=1.0; $p=.422$) contrast with the decrease in the Waitlist Group (median change=-9.0; $p=.031$) (Table 4).

Comparison between merged Intervention and Waitlist groups after crossover (Table 5) showed significant change over time for cognitive abilities ($p=.011$) and gross motor skills ($p=.011$). Specifically, Wilcoxon signed-rank tests reveal a significant moderate increase in cognitive abilities during the intervention period (median change in composite score =5.0; $p=.010$; $ES=.57$), with a trend toward a moderate amelioration that is short of statistical signification between scores before the intervention and at 3-month follow-up (median change in composite score =5.0; $p=.137$; $ES=.48$). For the gross motor skills, a significant decrease is reported after the end of the intervention (median change in scaled score =-1.0; $p=.016$; $ES=.72$).

Discussion

Before looking at the primary (parent-child interactions) and secondary (children development) outcomes, we explored parents' fidelity of implementation after the intervention as a prerequisite to changes in proximal and distal outcomes. Preliminary analyses revealed an increase in parents' use of strategy learned during the 12-session parent-mediated intervention that was significantly different from the natural trend (no change) observed in the Waitlist Group. Although, the percentage (16%) of parents reaching the fidelity threshold (80% or more) is less than what was previously published concerning the parent delivery of the *ESDM* (Vismara et al., 2009; Vismara & Rogers, 2008), median percentage of implementation (71% post-intervention) are similar to previously published data on parent-mediated intervention for toddlers with ASD in which most studies reported a high level of parents' fidelity of the implementation of strategies (Beaudoin et al., 2014). Also, parents' stability in implementation of strategy after the intervention period is

promising in regards of the level of integration of these strategies by parents, especially considering that our sample includes multiple vulnerable families. In fact, most participants are in the low-to-moderate socioeconomic status with a large majority of the sample below the median household income in Quebec (Canada) that is \$73 870 CAD (Statistique Canada, 2016). Also, the sample was culturally diversified, as illustrated by the proportion of the sample that has cultural background other than Canadian (42.1%) and uses a language other than French or English (26.3%). In comparison, only 14.8% of families having a child under five years of age in Quebec speak another language than French or English (Lavoie & Fontaine, 2016).

Results on the primary outcome showed that parent-child dyadic engagement increased during the intervention process, but this improvement was not sufficient to differ statistically from the maturation effect observed in the Waitlist Group. Interestingly, parent-child dyadic engagement in both groups increased significantly more than what was previously published in Adamson and colleagues' (2012) paper. For example, higher scores in parent-child dyadic engagement in our participants in the Waitlist Group at Time 2 (median age: 30 months; median score: 59.0) compared to age-matched children with ASD in the original data (54.8) from Adamson and colleagues (2012) might explain, at least in part, the lack of significant difference observed between groups in parent-child dyadic engagement change during the first 3-month period.

Even though multiple studies previously had explored the effects of parent-mediated intervention on parent-child interactions, most of them looked at parent-child interactions from distinct parental and children's perspectives (Beaudoin et al., 2014). Although Sameroff's *Transactional Model* (Sameroff, 1993) highlights the importance of dynamic interactions between children and their parents, only three studies (Green et al., 2013, 2015; Kasari, Gulsrud, Paparella, Hellemann, & Berry, 2015) used a global measure to assess parent-child interactions. From the three studies, only Kasari and colleagues' (2015) used a similar tool as we did; a previous version of Adamson's tool targeting uniquely the first subscale (joint engagement) of the *Engagement state, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* (Adamson et al., 2013). Interestingly, this study reported a significant

improvement in parent-child interactions. Based on the change observed in parent-child dyadic engagement total and scale scores. Thus, Adamson's (2013) *Engagement state, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* tool seems to be an interesting tool to evaluate the change in parent-child interactions after a parent-mediated intervention that might have the adequate sensitivity to change. However, further researches are needed to look at psychometric properties of this assessment tool and the minimal clinically significant change over time.

Parent-child dyadic engagement scores at follow-up are hard to interpret due to our small sample size and high rate of lost to follow-up. Despite the limited power of statistical analyses, the increase in parent-child interactions during the intervention period leads to higher levels of parent-child interaction at the end of the study compared to initial level. In fact, moderate-to-large effect sizes between pre-intervention and follow-up scores reveal maintenance over time of parent-child dyadic engagement except for the subscale Shared Topic that came back to initial level at follow-up. Future studies including a larger sample are necessary to understand better the evolution of parent-child dyadic engagement in toddlers with ASD receiving intervention targeting this proximal outcome. Also, considering the possible attrition bias related to the high rate of lost to follow-up (Jüni, Altman, & Egger, 2001), future studies should integrate specific components for limiting lost to follow-up, such as limiting duration of assessment or offering to parents a report on child development.

For our secondary outcomes, differential developmental trajectories were observed for three developmental areas typically limited in children with ASD, including cognitive abilities, motor skills, and social adaptive behaviors (American Psychiatric Association, 2013; Jasmin et al., 2009). First, we observed a decrease in composite scores in the Waitlist Group between Time 1 and Time 2 with moderate effect sizes, but with a relative stability in raw scores. These results in the Waitlist Group indicate that toddlers with a suspicion of ASD who did not receive the parent-mediated intervention (Waitlist Group) reported no-to-few gains in cognitive abilities, motor skills, and social adaptive behaviors that are manifested by an increase in their developmental gap compared to age-matched typical peers. This stagnation in toddlers' development is congruent with previously published results highlighting the

variability in early trajectories that may include persistence, regression, or improvement of ASD-related impairments in toddlers (Lord, Luyster, Guthrie, & Pickles, 2012). Secondly, even though toddlers in the Intervention Group did not statistically improve their developmental scores, the relative stability of aged-norm composite scores on children's cognitive abilities, motor skills, and adaptive behaviors indicate that these toddlers develop at a similar rate than age-matched typically developing peers. Even though previously published effects of parent-mediated intervention on developmental outcomes are very heterogeneous both for toddlers (Beaudoin et al., 2014) and older children (Oono, Honey, & McConachie, 2013), these results are congruent with the hypothesis that very early interventions for infants and toddlers at risk ASD may offer a “normal trajectory and remit or reduce the expression of symptoms” (Webb, Jones, Kelly, & Dawson, 2014). However, improvements in children's outcomes were not maintained at follow-up. To optimize long-term effect of parent-mediated intervention, future studies should incorporate booster sessions, such as to continue improving parent-child interactions and children abilities after the end of the intervention (Oosterling et al., 2010). Including individual or group booster sessions every few weeks or months might help parents remember some essential components of the program and give them the opportunity to share emotions and experiences.

4.1 Strengths and limitations

A major limitation of this study is the small sample size that limits the possible statistical analyses. In fact, considering the data distribution, the research team had to analyse data with non-parametric tests limiting the ability to control for other outcomes such as the hours of other intervention received, aged, or level of children development at recruitment. Moreover, the sample size is considerably reduced concerning follow-up data due to 42% rate of lost to follow-up. Thus, an attrition bias may influence the results and they should be interpreted with caution.

On the other side, the sample recruited was very diversified. This culturally and socioeconomically diversified sample is a major strength of this study. In fact, being able to use a parent-mediated intervention and observe clear trends toward amelioration in a sample that represents the diversity of families having a toddler with ASD is closer to results that

can be obtained in real-life setting. Although, future studies assessing the effects of parent-mediated intervention should explore the effects of such interventions in a real implementation setting, offering the intervention through services providers rather than research team.

Conclusion

Very promising effect sizes underline trends toward moderate-to-large improvement in parent-child dyadic engagement and a mild-to-moderate normalization of children's developmental outcomes after a 12-week parent-mediated intervention. However, results at 3-month follow-up are inconclusive due to the high rate of lost to follow-up. These results also highlight greater benefits on proximal outcomes, specifically the way parent and child interact with one another in play compared to more distal child-related outcomes (Helm & Kozloff, 1986; Mahoney & Perales, 2003; Mahoney & Perales, 2005; Oono et al., 2013). Future studies should explore the effect of this intervention on parental well-being, which can also mediate the effect of a parent-mediated intervention (Baker-Ericzén, Brookman-Frazee, & Stahmer, 2005; Vismara et al., 2009) on more distal outcomes such as child development.

Conflict of interest

The authors declare that there is no conflict of interest regarding the publication of this paper.

References

- Adamson, L. B., Bakeman, R., Deckner, D. F., & Nelson, P. B. (2012). Rating Parent–Child Interactions: Joint Engagement, Communication Dynamics, and Shared Topics in Autism, Down Syndrome, and Typical Development. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(12), 2622–2635. <https://doi.org/10.1007/s10803-012-1520-1>
- Adamson, L. B., Bakeman, R., Deckner, D. F., & Nelson, P. B. (2013). *Items for Rating the Communication Play Protocol: Engagement State, Child and Caregiver Behavior, and Shared Topic* (No. Technical Report 17).
- Adamson, L. B., Bakeman, R., Deckner, D. F., & Ronski, M. (2009). Joint Engagement and the Emergence of Language in Children with Autism and Down Syndrome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(1), 84–96. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0601-7>
- Adamson, L. B., McArthur, D., Markov, Y., Dunbar, B., & Bakeman, R. (2001). Autism and joint attention: Young children’s responses to maternal bids. *Applied Developmental Psychology*, 22, 439–453.
- Aldred, C., Green, J., & Adams, C. (2004). A new social communication intervention for children with autism: pilot randomised controlled treatment study suggesting effectiveness: Randomised social communication treatment for autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 45(8), 1420–1430. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2004.00338.x>
- American Psychiatric Association. (2013). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 5* (5th edition). Washington, DC.
- Baker-Ericzén, M. J., Brookman-Frazee, L., & Stahmer, A. (2005). Stress levels and adaptability in parents of toddlers with and without autism spectrum disorders. *Research and Practice for Persons with Severe Disabilities*, 30(4), 194–204.

- Bayley, N. (2006). *Bayley Scales of Infant and Toddler Development– Third Edition*. San Antonio, TX: Harcourt Assessment.
- Bearss, K., Burrell, T. L., Stewart, L., & Scahill, L. (2015). Parent Training in Autism Spectrum Disorder: What’s in a Name? *Clinical Child and Family Psychology Review*, 18(2), 170–182. <https://doi.org/10.1007/s10567-015-0179-5>
- Beaudoin, A. J., Sébire, G., & Couture, M. (2014). Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Autism Research and Treatment*, 2014, 1–15. <https://doi.org/10.1155/2014/839890>
- Carter, A. S., Messinger, D. S., Stone, W. L., Celimli, S., Nahmias, A. S., & Yoder, P. (2011). A randomized controlled trial of Hanen’s “More Than Words” in toddlers with early autism symptoms. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 52(7), 741–752. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2011.02395.x>
- Drew, A., Baird, G., Baron-Cohen, S., Cox, A., Slonims, V., Wheelwright, S., ... Charman, T. (2002). A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 11(6), 266–272. <https://doi.org/10.1007/s00787-002-0299-6>
- Green, J., Charman, T., McConachie, H., Aldred, C., Slonims, V., Howlin, P., ... Consortium, P. (2010). Parent-mediated communication-focused treatment in children with autism (PACT): a randomised controlled trial. *The Lancet*, 375(9732), 2152–2160. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(10\)60587-9](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(10)60587-9)
- Green, J., Charman, T., Pickles, A., Wan, M. W., Elsabbagh, M., Slonims, V., ... Johnson, M. H. (2015). Parent-mediated intervention versus no intervention for infants at high risk of autism: a parallel, single-blind, randomised trial. *The Lancet Psychiatry*, 2(2), 133–140. [https://doi.org/10.1016/S2215-0366\(14\)00091-1](https://doi.org/10.1016/S2215-0366(14)00091-1)
- Green, J., Wan, M. W., Guiraud, J., Holsgrove, S., McNally, J., Slonims, V., ... The BASIS Team. (2013). Intervention for Infants at Risk of Developing Autism: A Case Series.

- Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(11), 2502–2514.
<https://doi.org/10.1007/s10803-013-1797-8>
- Gulsrud, A. C., Jahromi, L. B., & Kasari, C. (2010). The Co-Regulation of Emotions Between Mothers and their Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(2), 227–237. <https://doi.org/10.1007/s10803-009-0861-x>
- Harrison, P., & Oakland, T. (2003). *Adaptive Behavior Assessment System, 2nd Edition (ABAS-II)*. The Psychological Corporation.
- Helm, D. T., & Kozloff, M. A. (1986). Research on parent training: Shortcomings and remedies. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 16(1), 1–22.
- Ingersoll, B., & Wainer, A. (2013). Initial Efficacy of Project ImPACT: A Parent-Mediated Social Communication Intervention for Young Children with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(12), 2943–2952. <https://doi.org/10.1007/s10803-013-1840-9>
- Jasmin, E., Couture, M., McKinley, P., Reid, G., Fombonne, E., & Gisel, E. (2009). Sensori-motor and Daily Living Skills of Preschool Children with Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(2), 231–241. <https://doi.org/10.1007/s10803-008-0617-z>
- Jüni, P., Altman, D. G., & Egger, M. (2001). Systematic reviews in health care: assessing the quality of controlled clinical trials. *BMJ: British Medical Journal*, 323(7303), 42.
- Kasari, C., Gulsrud, A. C., Wong, C., Kwon, S., & Locke, J. (2010). Randomized Controlled Caregiver Mediated Joint Engagement Intervention for Toddlers with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(9), 1045–1056. <https://doi.org/10.1007/s10803-010-0955-5>
- Kasari, C., Gulsrud, A., Paparella, T., Hellemann, G., & Berry, K. (2015). Randomized comparative efficacy study of parent-mediated interventions for toddlers with autism. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 83(3), 554–563. <https://doi.org/10.1037/a0039080>

- Kasari, C., Siller, M., Huynh, L. N., Shih, W., Swanson, M., Hellemann, G. S., & Sugar, C. A. (2014). Randomized controlled trial of parental responsiveness intervention for toddlers at high risk for autism. *Infant Behavior and Development*, 37(4), 711–721. <https://doi.org/10.1016/j.infbeh.2014.08.007>
- Koegel, R. L., Bimbela, A., & Schreibman, L. (1996). Collateral effects of parent training on family interactions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 26(3), 347–359. <https://doi.org/10.1007/BF02172479>
- Landa, R. J., Holman, K. C., O'Neill, A. H., & Stuart, E. A. (2011). Intervention targeting development of socially synchronous engagement in toddlers with autism spectrum disorder: a randomized controlled trial. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 52(1), 13–21. <https://doi.org/10.1111/j.1469-7610.2010.02288.x>
- Lavoie, A., & Fontaine, C. (2016). *Mieux connaître la parentalité au Québec: Un portrait à partir de l'Enquête québécoise sur l'expérience de 0 à 5 ans 2015* (p. 258 p.). Québec, Qc: Institut de la statistique du Québec.
- Lord, C., Luyster, R., Guthrie, W., & Pickles, A. (2012). Patterns of developmental trajectories in toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 80(3), 477. <https://doi.org/10.1037/a0027214>
- Luyster, R., Gotham, K., Guthrie, W., Coffing, M., Petrak, R., Pierce, K., ... Lord, C. (2009). The Autism Diagnostic Observation Schedule—Toddler Module: A New Module of a Standardized Diagnostic Measure for Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(9), 1305–1320. <https://doi.org/10.1007/s10803-009-0746-z>
- Mahoney, G., & Perales, F. (2003). Using Relationship-Focused Intervention to Enhance the Social Emotional Functioning of Young Children with Autism Spectrum Disorders. *Topics in Early Childhood Special Education*, 23(2), 74–86. <https://doi.org/10.1177/02711214030230020301>

- Mahoney, G., & Perales, F. (2005). Relationship-Focused Early Intervention With Children With Pervasive Developmental Disorders and Other Disabilities: A Comparative Study. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 26(2), 77. <https://doi.org/10.1097/00004703-200504000-00002>
- Oono, I. P., Honey, E. J., & McConachie, H. (2013). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorders (ASD). In The Cochrane Collaboration (Ed.), *Cochrane Database of Systematic Reviews*. Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd. Retrieved from <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD009774.pub2>
- Oosterling, I., Visser, J., Swinkels, S., Rommelse, N., Donders, R., Woudenberg, T., ... Buitelaar, J. (2010). Randomized Controlled Trial of the Focus Parent Training for Toddlers with Autism: 1-Year Outcome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(12), 1447–1458. <https://doi.org/10.1007/s10803-010-1004-0>
- Prizant, B. M., Wetherby, A. M., Rubin, E., & Laurent, A. C. (2003). The SCERTS Model: A Transactional, Family-Centered Approach to Enhancing Communication and Socioemotional Abilities of Children With Autism Spectrum Disorder. *Infants & Young Children*, 16(4), 296. <https://doi.org/10.1097/00001163-200310000-00004>
- Robins, D. L., Casagrande, K., Barton, M., Chen, C.-M. A., Dumont-Mathieu, T., & Fein, D. (2014). Validation of the modified checklist for autism in toddlers, revised with follow-up (M-CHAT-R/F). *Pediatrics*, 133(1), 37–45.
- Rogers, S. J., & Dawson, G. (2010). *Early start Denver model for young children with autism: Promoting language, learning, and engagement*. Guilford Press. Retrieved from <https://books.google.ca/books?hl=fr&lr=&id=EDrT4fu7xzoC&oi=fnd&pg=PA1&dq=early+start+denver+model+for+young+children+with+autism&ots=H5MW7T1e47&sig=X-TyHmNIK3W2fCZLiG3ijHOrOkM>
- Rogers, S. J., Dawson, G., & Vismara, L. A. (2012). *An Early Start for Your Child with Autism: Using Everyday Activities to Help Kids Connect, Communicate, and Learn*. New York, NY: The Guilford Press.

- Rogers, S. J., Estes, A., Lord, C., Vismara, L., Winter, J., Fitzpatrick, A., ... Dawson, G. (2012). Effects of a brief Early Start Denver Model (ESDM)–based parent intervention on toddlers at risk for autism spectrum disorders: A randomized controlled trial. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 51(10), 1052–1065.
- Rogers, S. J., & Wallace, K. S. (2011). Intervention for Infants and Toddlers with Autism Spectrum Disorders. In *Autism spectrum disorders* (Amaral, D. G., Dawson, G. & Geschwind, D. H., pp. 1081–1094). New York, NY: Oxford University Press.
- Rutter, M., Le Couteur, A., & Lord, C. (2003). *ADI-R: Autism diagnostic interview-revised WPS edition*. Los Angeles: Western Psychological Services.
- Sameroff, A. J. (1993). Models of development and developmental risk. Retrieved from <http://psycnet.apa.org/psycinfo/1993-98147-001>
- Siller, M., Hutman, T., & Sigman, M. (2013). A Parent-Mediated Intervention to Increase Responsive Parental Behaviors and Child Communication in Children with ASD: A Randomized Clinical Trial. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(3), 540–555. <https://doi.org/10.1007/s10803-012-1584-y>
- Statistique Canada. (2016). *Les familles de recensement comprennent les familles comptant un couple, avec ou sans enfants, et les familles monoparentales*. Retrieved from <http://www.statcan.gc.ca/tables-tableaux/sum-som/102/cst01/famil108a-fra.htm>
- Vismara, L. A., Colombi, C., & Rogers, S. J. (2009). Can one hour per week of therapy lead to lasting changes in young children with autism? *Autism*, 13(1), 93–115. <https://doi.org/10.1177/1362361307098516>
- Vismara, L. A., & Rogers, S. J. (2008). The Early Start Denver Model: A Case Study of an Innovative Practice. *Journal of Early Intervention*, 31(1), 91–108. <https://doi.org/10.1177/1053815108325578>
- Webb, S. J., Jones, E. J. H., Kelly, J., & Dawson, G. (2014). The motivation for very early intervention for infants at high risk for autism spectrum disorders. *International*

Journal of Speech-Language Pathology, 16(1), 36–42.
<https://doi.org/10.3109/17549507.2013.861018>

Wetherby, A. M., Brosnan-Maddox, S., Peace, V., & Newton, L. (2008). Validation of the Infant--Toddler Checklist as a broadband screener for autism spectrum disorders from 9 to 24 months of age. *Autism*, 12(5), 487–511.
<https://doi.org/10.1177/1362361308094501>

Zwaigenbaum, L. (2005). The Screening Tool for Autism in Two Year Olds can identify children at risk of autism. *Evidence Based Mental Health*, 8(3), 69–69.
<https://doi.org/10.1136/ebmh.8.3.69>

Zwaigenbaum, L., Bauman, M. L., Choueiri, R., Kasari, C., Carter, A., Granpeesheh, D., ... Natowicz, M. R. (2015). Early Intervention for Children With Autism Spectrum Disorder Under 3 Years of Age: Recommendations for Practice and Research. *Pediatrics*, 136 Suppl 1(Supplement), S60–S81. <https://doi.org/10.1542/peds.2014-3667e>

Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Lord, C., Rogers, S., Carter, A., Carver, L., ... others. (2009). Clinical assessment and management of toddlers with suspected autism spectrum disorder: insights from studies of high-risk infants. *Pediatrics*, 123(5), 1383–1391.

Article 4

Avant-propos

Impact on parental well-being of a parent-mediated intervention for toddlers suspected of autism spectrum disorder: A mixed methods study

Auteurs de l'article: BEAUDOIN, Audrée Jeanne, GAUTHIER-BOUDREAULT, Camille, SÉBIRE, Guillaume, & COUTURE, Mélanie

Statut de l'article: soumis : Beaudoin, A.J., Gauthier-Boudreault, C., Sébire, G., & Couture, M. (soumis) Impact on parental well-being of a parent-mediated intervention for toddlers suspected of autism spectrum disorder: A mixed methods study. *Autism Research and Treatment*.

La contribution d'Audrée Jeanne Beaudoin pour le travail en lien avec cet article inclut: l'expérimentation avec la majorité des familles, la collecte des données quantitatives, l'analyse des données, l'intégration des données quantitatives et qualitatives et la rédaction du manuscrit. Camille Gauthier-Boudreault a collecté les données qualitatives (entrevues) et a participé à l'analyse des données qualitatives. Guillaume Sébire et Mélanie Couture ont supervisé l'expérimentation et la rédaction du manuscrit.

Les trois coauteurs ont autorisé l'intégration de cet article dans la thèse d'Audrée Jeanne Beaudoin.

Résumé

Bien que les parents soient les acteurs principaux des interventions d'accompagnement parental ciblant les enfants avec un TSA, peu d'études ont examiné l'impact de ces interventions d'accompagnement parental sur le bien-être des parents. En utilisant un devis mixte de type séquentiel explicatif, cette étude visait à 1) décrire l'impact d'un programme d'accompagnement parental de 12 semaines sur les variables parentales (satisfaction, sentiment de compétence, stress) et 2) identifier les facteurs potentiellement associés avec ces variables en fonction de l'expérience vécue par les parents ayant participé au programme. Les données quantitatives ont été collectées auprès de 13 familles ayant un jeune enfant avec une suspicion de TSA et les entrevues qualitatives ont été réalisées auprès d'un sous-échantillon de six familles. Les parents ont rapporté un haut niveau de satisfaction face à l'intervention. Les données quantitatives révèlent un effet stabilisateur de l'intervention sur le sentiment de compétence comparé à une diminution observée dans le groupe contrôle (PSOC Auto-efficacité; $p=.048$; $ES=.46$). Une tendance vers une réduction de la détresse parental a également été notée lors de l'intervention (PSI-SF; $p=.141$; $ES=.48$). Les données qualitatives appuient l'importance d'offrir 1) une formation parental précoce sur les façons de stimuler leur enfant et 2) du soutien social aux parents dans la période stressante qui entoure l'évaluation diagnostique. Cette étude souligne l'importance de considérer l'équilibre précaire entre le soutien éducatif offert aux parents qui améliore leur sentiment de compétence et le soutien social visant à optimiser le bien-être des parents d'enfant avec une suspicion de TSA.

Abstract

Although parents are the main actors in parent-mediated interventions for toddlers with ASD, few studies have examined the impact of parent-mediated interventions on parental well-being. This sequential explanatory mixed methods study aimed to: 1) describe the impact of a 12-week parent-mediated intervention on parental outcomes (satisfaction, sense of competence, stress), and 2) identify potential factors associated with these outcomes based on parents' experience with the program. Quantitative data were collected with 13 families with a toddler suspected of ASD; qualitative interviews were conducted with a subsample of 6 families. Parents reported a high level of satisfaction with the intervention. Quantitative data revealed a stabilizing effect on parenting sense of competence compared to a decrease in the control group (PSOC Efficacy scale; $p=.048$; $ES=.46$). There was a trend toward reduced parental distress (PSI-SF; $p=.141$; $ES=.48$) during the intervention. Qualitative data pointed up the importance of providing: 1) early parental training about ways to stimulate their child, and 2) social support for parents in the stressful period surrounding the diagnosis. This study highlights the importance of considering the delicate balance between providing educational support to enhance parents' sense of competence and offering targeted social support for parents of children suspected of ASD.

Keywords: pervasive developmental disorders, caregiver, early intervention, stress, sense of competence

1. Introduction

Parenting a child with autism spectrum disorder (ASD) has been associated with parental anxiety (1-3) and depression (4). Parents of children with ASD face unique challenges with respect to their child's difficulties in social interaction and behavioral issues related to the diagnosis of ASD (5).

Knowing that toddlers' development is mostly influenced by their caregivers (6), parent-mediated interventions are getting more attention as a way to offer very early interventions for young children with a diagnosis or suspicion of ASD (7). Although parents are the main actors in parent-mediated interventions, few studies have examined the impact of this type of intervention on parental well-being (7). Wong and Kwan reported a decrease in parental stress following a 10-session parent-mediated intervention delivered intensively over 2 weeks (8). However, two other studies reported no change in parents' stress after they participated in weekly sessions over a 10-week (9) and 1-year (10) period of parent-mediated interventions. The only study measuring the impact of a parent-mediated intervention for toddlers with ASD on parenting sense of competence reported no effect after a 12-session parent-mediated intervention based on the *Early Start Denver Model* (11). Another study explored the experience of parents of toddlers with ASD receiving a group-based parent-mediated intervention (12). This qualitative inquiry suggested that parents viewed the intervention as an appropriate starting point in learning how to interact better and stimulate their child (12).

The limited amount of evidence prevents us from drawing firm conclusions regarding the impact of a parent-mediated intervention on parental outcomes. Do parents feel relieved to receive coaching on how to interact with their child? Or do they feel overwhelmed by the burden of having to learn and apply specific techniques with their child and stimulate their development rather than relying on therapists?

In this context, our goal was to examine both quantitatively and qualitatively parental perspectives of a 12-week parent-mediated intervention for toddlers with a suspicion of ASD.

2. Methods

This paper reports secondary outcomes of a research project primarily aimed at assessing the impact of a 12-week parent-mediated intervention for toddlers (12-30 months old) suspected of ASD on parent-child interactions and child development (13). Specifically, this mixed methods study aimed to: 1) describe the impact of the parent-mediated intervention on parental satisfaction, sense of competence, and stress, and 2) identify potential factors associated with these outcomes based on parents' experience with the program.

2.1. Study Design

This sequential explanatory mixed methods study (14) integrated exploratory qualitative data following a crossover randomized controlled trial. The findings were integrated “using both qualitative and quantitative approaches or methods in a single study or program of inquiry” (15) as the final and crucial step of the mixed methods design.

2.2. Procedures

Study procedures were approved by the Ethics Committee for Health Research in Humans of the [Name of the institution]. First, the eligibility assessment verified families' eligibility for the study, namely: a) parents speaking and understanding English or French well enough to benefit from the intervention, b) children aged between 12 and 30 months at recruitment, and c) children suspected of ASD. A two-step process was used to verify if the children manifested symptoms related to ASD:

- 1) Parents completed a screening questionnaire and follow-up interview depending on the child's age:
 - Children aged between 12 and 17 months: *Communication and Symbolic Behavior Scale* (CSBS) *Infant-Toddler Checklist* (ITC) and *Caregiver Questionnaire* (16)
 - Children aged between 18 and 30 months: *Modified Checklist for Autism in Toddlers – Revised* (M-CHAT-R) and *M-CHAT-R Follow-up* (17).
- 2) Research team completed the *Autism Diagnosis Observation Schedule – Toddler Module* (ADOS-T; 18) and *Autism Diagnostic Interview – Revised* (ADI-R; 19) for

children who scored as being at risk of ASD based on the screening questionnaire and follow-up interview.

Participants were randomly assigned in blocks of four based on the child's age at recruitment (less than 18 months; 18 months or more) to the Intervention Group (receiving the intervention immediately) or the Waitlist Group (waiting three months before getting the intervention). Three (Intervention Group) or four (Waitlist Group) assessment times were planned at 3-month intervals. Thus, all participants were assessed, at a minimum, before the intervention (baseline), immediately after completing the parent-mediated intervention (post-intervention), and three months after the end of the intervention (follow-up). The additional assessment time for the Waitlist Group was the second baseline assessment conducted after the 3-month wait and before starting the intervention (second baseline). At each assessment time, parents completed questionnaires to collect data on parental well-being. After the intervention, all parents also completed an additional survey to gather data on their satisfaction with the program. Based on sociodemographic data and satisfaction level, six families representative of the sample were invited to participate in an interview with an independent interviewer to collect more in-depth information on parental well-being and the social validity of the intervention.

2.3. Intervention

The parent-mediated intervention offered to the families was an adaptation of the parent delivery of the *Early Start Denver Model* (P-ESDM; 20), to which the research team added some components from the Social Communication / Emotional Regulation / Transactional Support model (SCERTS; 21). More specifically, one of the two therapists went to the family's home and, in the presence of at least one parent and the toddler at risk of ASD, led 12 weekly sessions. These 12 sessions included the 10 original sessions from the P-ESDM, plus two sessions based on the SCERTS, focusing on recognition of the children's arousal state, potential threats to emotional regulation, and ways to optimize their openness to learning. Each session followed the 5-step P-ESDM procedure, which included: 1) discussion of the past week with the parent, 2) 10-minute free play period between child and parent, 3) introduction of a new strategy by the therapist using discussion, written handout, and

examples, 4) opportunity for parents to practice the strategy with feedback from the therapist, and 5) final discussion about opportunities for parents to practice the strategy in the coming week (22; 23). Although parents were encouraged to use the strategies in their daily routines with their child, there was no requirement with respect to implementation time, frequency, or period in their everyday life. If parents raised any other concerns during the intervention, the therapist took the time to give them information or refer them to other resources to address their needs. Most sessions lasted from 45 to 90 minutes, depending on concerns and questions raised by parents.

In addition, participants were encouraged to benefit from treatment-as-usual throughout their participation in the research project. Thus, participants randomized to the Waitlist Group had access to treatment-as-usual in the first three months while waiting for the parent-mediated intervention. In Quebec, however, services for families with a child under 30 months with a suspicion of ASD are limited. Families participating in this study received a median of 0 hours/week of other interventions, ranging from 0 to 2.5 hours/week in the Intervention Group and from 0 to 1 hour/week in the Waitlist Group during their first three months of participating in this program. Other interventions received included early stimulation groups, speech and language therapy, and babysitting services.

2.4. Measures

This paper aimed to explore secondary outcomes related to parental perspectives of their involvement in a parent-mediated intervention, including parents' satisfaction, sense of competence and stress.

Parents' satisfaction was documented only at the post-intervention assessment using the French or English version of the *Client Satisfaction Questionnaire-8* (CSQ-8; 24, 25). A higher score on the CSQ-8 indicates a higher level of satisfaction. This short questionnaire has been previously used to explore the satisfaction of parents with children with ASD in relation to different interventions (26, 27). The CSQ-8 was completed by 11 of the 13 participants.

To measure parenting sense of competence, parents also completed the French or English version of the *Parenting Sense of Competence* (28, 29) at every assessment time. Results for the 17 items rated on a 6-point Likert scale were summed into three subscales (satisfaction, efficacy, and interest) and a total score, as described by Gilmore and Cuskelly (30). Higher scores indicate a higher parenting sense of competence (or increase in parental well-being). This tool has also been previously used in studies with children with ASD (1, 31).

Parental stress was measured using the French or English version of the *Parenting Stress Index-Short Form* (PSI-SF; 32, 33) completed by the parents at every assessment time. The 36 items are clustered in 3 subscales (parental distress, parent-child dysfunctional interaction, and difficult child) and a total score. Higher scores indicate higher levels of parental stress (or decrease in parental well-being). The four scores were calculated and transformed into standard scores (mean=50; standard deviation=10). This assessment tool has been widely used in studies of young children with developmental disabilities, including autism (34).

A subsample of six parents then completed a semi-structured interview with an interviewer outside the research project. The aim was to collect more in-depth data on parental perspectives regarding the impact of the intervention and suggestions to improve it based on their experience and needs. The audiotaped interviews lasting about 30 minutes were conducted either on the phone or in person, based on the parents' preference. These semi-structured interviews used an interview guide to ensure that all relevant aspects were addressed during the discussion, including the family's experience with participating in the intervention, elements they liked, benefits, adverse impacts, and potential improvements to the program. Examples of opening questions included: "How did you like the intervention program you participated in?", "Which things did you like less?" and "How could we adapt the program?" When necessary, the interviewer used probes such as: "Can you tell me more?", "What do you mean?" or "Can you give me an example?" to flesh out the parents' comments.

2.5. Data Analysis

Quantitative analyses for parents' satisfaction included only descriptive analyses of parent-reported satisfaction (i.e. median, range). Quantitative analyses for parental sense of competence and stress involved a 2-step analysis pathway. First, the direct impact of the intervention was assessed using the change in parent-child interactions between assessment times T1 and T2 separately for the two groups. Second, a combined analysis looked at the effect of time comparing scores at baseline, post-intervention and follow-up for the combined group (Intervention and Waitlist merged). More specifically, each analysis pathway included two steps. First, looking at the direct impact of the intervention separately for the two groups, we conducted: 1) Wilcoxon signed rank tests separately for the two groups between T1 and T2 for the Intervention Group and for the Waitlist Group receiving treatment-as-usual while waiting for the parent-mediated intervention, and 2) a Mann-Whitney U-test comparing changes between the groups. Then, since participants in the Waitlist Group received the intervention between T2 and T3, we conducted: 3) a Mann-Whitney U-test on the difference in scores during the intervention period for the Intervention Group (T1 and T2) and the Waitlist Group (T2 and T3). If no significant difference was found between the groups, both groups were merged into a single, larger group (groups had a similar intervention effect), and 4) Friedman ANOVA and Wilcoxon signed rank tests with Bonferroni correction adjusting for multiple comparisons (p value for Wilcoxon signed rank test $= .05/3 = .017$) were used to test for changes in parental well-being between baseline, post-intervention and follow-up for this combined group.

For the qualitative data, interviews were transcribed into *NVivo11* and analyzed by both the interviewer (Ph.D. student with experience in qualitative research but outside the research project) and the lead therapist (Ph.D. student with in-depth understanding of the parent-mediated intervention and the research project). Based on the qualitative analysis procedure described by Miles, Huberman and Saldana, we performed three iterative activities: 1) data condensation, 2) data presentation, and 3) elaboration and verification (35). Independently, both evaluators first extracted meaningful units from the transcripts (36) and coded these sections based on the initial list of codes in light of the logic model of the intervention (37) as well as concepts emerging from the interviews using an iterative analysis process.

Analyses conducted independently by both evaluators included both intra-case and between-case analyses to identify similarities and differences in parents' comments. Next, the two evaluators compared their interpretations, achieved consensus regarding coding, and elaborated relationships about key concepts in regard to the logic model of the program. Finally, conclusions were reached and verified by the research team based on the interview transcripts and previous studies. It is important to note that although parents reported information on different aspects of the logic model of the intervention program (i.e. strategies, modalities, implementation, child development and parental well-being), in this paper we focus on results related to parental well-being.

Once data collection was fully completed, quantitative and qualitative data were compared for convergence and divergence, and then integrated, resulting in a more in-depth understanding of the impact of the parent-mediated intervention based on parental perspectives (14). Whereas quantitative data were computed based on multiple-choice questionnaires, qualitative data detailed the families' lived experience as well as positive and negative aspects of the program as perceived by parents who were the main actors in the parent-mediated intervention. Also, the qualitative analysis revealed excellent suggestions from parents for future parent-mediated programs to improve the impact of such interventions on parental well-being, which enhances the interpretation of quantitative results.

3. Results

3.1. Participants

Of the original 19 parent-child dyads included in the study, 13 families completed the questionnaires on parental well-being, at least for the first two assessment times: seven dyads from the Intervention Group (53.8%) and six dyads from the Waitlist Group (46.2%). The primary caregivers involved in the parent-mediated intervention were mostly mothers ($n=10$; 76.9%). The median age of the primary caregiver was 36.1 years (range: 23.0-46.5). Intervention and Waitlist groups were similar for all child and family sociodemographic variables assessed at baseline (Table 1).

Table 1
Sociodemographic data at baseline

| | Intervention Group (n=7) | Waitlist Group (n=6) | Group difference (<i>p</i> value) |
|---|-----------------------------|-------------------------|---------------------------------------|
| <u>Children's sociodemographics</u> | | | |
| Gender (boys) ² | 6 (85.7%) | 4 (66.7%) | .559 |
| Age (months) ¹ | 27 (16 - 30) | 26 (25 - 29) | .885 |
| <u>Family sociodemographics</u> | | | |
| Caregiver (mothers) ² | 6 (85.7%) | 4 (66.7%) | .559 |
| Age (years) ¹ | 35.1 (26.5 - 46.5) | 36.1 (23.0 - 39.3) | .886 |
| Number of children ¹ | 2 (1 - 4) | 2 (1 - 2) | .285 |
| Family income (< \$65,000) ² | 6 (85.7%) | 5 (83.3%) | 1.000 |
| Occupation (working/studying) ² | 4 (57.1%) | 3 (50.0%) | 1.000 |
| Education (years) ¹ | 14 (12 - 17) | 16 (12 - 18) | .327 |
| Ethnicity (Caucasian) ² | 4 (57.1%) | 3 (50.0%) | 1.000 |
| Main language (French/English) ² | 6 (85.7%) | 3 (50.0%) | .266 |

¹Numerical data: Median (range); Mann-Whitney U test

²Categorical data: Frequency (percentage); Fisher's exact test |

For the qualitative part, a purposive subsample of six families was selected from the original sample of 19 families. As shown in Table 2, the six families who completed the qualitative part reflected the sociodemographic diversity of the full sample. All names used in this manuscript are pseudonyms.

Table 2
Sociodemographic data for the 6 families who completed the qualitative interview

| | Emma | James | Arthur ¹ | Elliot | Pedro | Paul |
|-------------------------------------|-------------------|--------------|---------------------|-------------------|-------------------|-------------------|
| <u>Children's sociodemographics</u> | | | | | | |
| Gender | F | M | M | M | M | M |
| Age (months) | 16 | 17 | 30 | 20 | 22 | 27 |
| <u>Family sociodemographics</u> | | | | | | |
| Main caregiver | Mother | Mother | Father | Mother | Mother | Mother |
| Age (years) | 31.4 | 35.5 | 36.1 | 33.7 | 43.2 | 39.3 |
| Number of children | 4 | 3 | 2 | 1 | 1 | 1 |
| Family income | \$40,000–\$64,999 | < \$15,000 | \$40,000–\$64,999 | \$65,000–\$89,999 | \$65,000–\$89,999 | \$65,000–\$89,999 |
| Occupation | Part-time work | At home | Full-time work | At home | At home | Part-time work |
| Education (years) | 14 | 13 | 21 | 17 | 16 | 16 |
| Ethnicity | Caucasian | Caucasian | Arabic | Caucasian | Latin-American | Caucasian |
| Main language | French | French | French | French | Spanish | English |
| Group allocation | Intervention | Intervention | Intervention | Waitlist | Intervention | Waitlist |

All names are pseudonyms.

¹Note: Five of the six parents interviewed were included in the 13 families for which quantitative data on parental well-being were collected for at least the first two assessment times. Arthur's family could not be included for quantitative analysis because his parent did not complete the questionnaires at T2.

3.2. Impact of the parent-mediated intervention on parental outcomes

With scores ranging from 2.88 to 4.00, all participants rated their satisfaction in the “satisfied” (from 2.5 to 3.5; $n=5$) or “very satisfied” (from 3.5 to 4; $n=6$) categories at the post-intervention assessment. With a median score of 3.625, most parents were “very satisfied” with the parent-mediated intervention.

Quantitative analysis of the immediate impact of the parent-mediated intervention on parenting sense of competence revealed that parents in the Waitlist Group had a decrease in their self-rated sense of competence after the 3-month waiting period for the total score (median change between T1 and T2=-6.0; $p=.063$; $ES=.83$) (Table 3). During the same period, parenting sense of competence remained stable in the Intervention Group (median change between T1 and T2=-1.0; $p=.219$; $ES=.32$). Between-group comparison reveals a statistically different evolution on the Efficacy scale ($p=.048$; $ES=.46$) for the Intervention Group (median change=1.0) compared to the Waitlist Group (median change=-5.0). Based on parents’ self-reported levels of stress, no significant change was observed between T1 and T2, within groups (Intervention Group $p=.500$ and $ES=.04$; Waitlist Group $p=.281$ and $ES=.52$) or between groups ($p=.193$ and $ES=.26$) (Table 3).

Table 3
Parental well-being at T1 and T2 for both groups

| | Intervention Group (n=7) | | | Waitlist Group (n=6) | | | Between-group comparison |
|--|--------------------------|-------------------------|-------------------------------------|-------------------------|-------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|
| | T1 median (range) | T2 median (range) | <i>p</i> value (ES) ¹ | T1 median (range) | T2 median (range) | <i>p</i> value (ES) ¹ | <i>p</i> value (ES) ² |
| Parenting stress total score (<i>T</i> score; 50 ± 10) | 56.0 (46.0; 74.0) | 58.0 (48.0; 69.0) | .500 (.04) | 58.0 (50.0; 75.0) | 64.0 (51.0; 71.0) | .281 (.52) | .193 (.26) |
| Parental distress (<i>T</i> score) | 55.0 (43.0; 65.0) | 50.0 (43.0; 70.0) | .141 (.48) | 58.5 (43.0; 75.0) | 59.5 (52.0; 75.0) | .938 (.04) | .302 (.16) |
| Parent-child dysfunctional interaction (<i>T</i> score) | 54.0 (48.0; 59.0) | 54.0 (48.0; 62.0) | .367 (.16) | 58.5 (55.0; 68.0) | 59.0 (55.0; 73.0) | .875 (.15) | .429 (.06) |
| Difficult child (<i>T</i> score) | 61.0 (46.0; 95.0) | 64.0 (49.0; 72.0) | .445 (.10) | 52.0 (49.0; 76.0) | 64.5 (46.0; 77.0) | .188 (.60) | .136 (.32) |
| Parenting sense of competence (raw score /96) | 57.0 (50.0; 67.0) | 57.0 (46.0; 62.0) | .219 (.32) | 64.5 (52.0; 72.0) | 54.5 (46.0; 65.0) | .063 (.83) | .109 (.36) |
| Satisfaction (raw score /36) | 28.0 (22.0; 31.0) | 26.0 (19.0; 33.0) | .281 (.28) | 28.0 (16.0; 32.0) | 25.5 (11.0; 33.0) | .125 (.72) | .177 (.28) |
| Efficacy (raw score /30) | 12.0 (7.0; 16.0) | 12.0 (6.0; 16.0) | .500 (.04) | 14.5 (13.0; 24.0) | 13.5 (8.0; 18.0) | .189 (.61) | .048* (.46) |
| Interest (raw score /18) | 13.0 (12.0; 15.0) | 12.0 (8.0; 14.0) | .125 (.61) | 13.5 (11.0; 16.0) | 13.5 (8.0; 18.0) | .625 (.28) | .136 (.32) |

No difference between groups at baseline

ES: Effect size; *Significant change ($p < 0.05$)

¹Wilcoxon signed ranked test; ²Mann-Whitney U test

Based on a similar evolution during the intervention period in the Intervention and Waitlist groups (p between .500 and 1.000), data from both groups were combined into a single group to analyze the impact of the intervention and maintenance at follow-up with a larger sample size. Friedman's non-parametric ANOVA (Table 4) showed no significant change in parents' sense of competence ($p=.302$) or parental stress ($p=.988$) between baseline, post-intervention and follow-up assessments for the 7 participants who completed all three assessment times. Nonetheless, a trend toward a reduction in parental distress was observed during the intervention period (median change=-4.0; $p=.051$; ES=.50) based on Wilcoxon signed rank tests with Bonferroni correction (p value < .017).

Table 4
Evolution of parental well-being for all participants (two groups merged)

| | Pre-int. (n=13) | Post-int. (n=11) | Follow-up (n=7) | Pre-/Post-FU (n=6) | Pre-Post (n=11) | Post-FU (n=6) | Pre-FU (n=7) |
|---|---------------------------|----------------------------|---------------------------|------------------------------|----------------------------|----------------------------|----------------------------|
| | median (range) | median (range) | median (range) | <i>p</i> value ¹ | <i>p</i> (ES) ² | <i>p</i> (ES) ² | <i>p</i> (ES) ² |
| Parenting stress (<i>T</i> score; 50 ± 10) | 61.0 (46.0; 74.0) | 58.0 (48.0; 69.0) | 60.0 (48.0; 75.0) | .988 | .166 (.31) | .750 (.17) | .781 (.12) |
| Parental distress (<i>T</i> score; 50 ± 10) | 58.0 (43.0; 75.0) | 50.0 (43.0; 70.0) | 55.0 (42.0; 80.0) | .879 | .051 (.50) | .625 (.26) | .641 (.19) |
| Parent-child dysfunctional interaction (<i>T</i> score; 50 ± 10) | 55.0 (48.0; 73.0) | 55.0 (48.0; 67.0) | 54.0 (46.0; 60.0) | .123 | .388 (.09) | .406 (.39) | .125 (.70) |
| Difficult child (<i>T</i> score; 50 ± 10) | 63.0 (46.0; 95.0) | 62.0 (49.0; 72.0) | 64.0 (5.0; 79.0) | .740 | .248 (.22) | 1.000 (.04) | .891 (.06) |
| Parenting sense of competence (raw score /96) | 55.0 (46.0; 67.0) | 58.0 (46.0; 63.0) | 57.0 (53.0; 66.0) | .302 | .241 (.23) | .750 (.17) | .781 (.13) |
| Satisfaction (raw score /36) | 27.0 (11.0; 33.0) | 27.0 (19.0; 33.0) | 24.0 (7.0; 34.0) | .702 | .290 (.17) | .844 (.13) | .406 (.36) |
| Efficacy (raw score /30) | 12.0 (7.0; 18.0) | 13.0 (6.0; 16.0) | 11.0 (7.0; 25.0) | .524 | .410 (.09) | .469 (.34) | .750 (.16) |
| Interest (raw score /18) | 13.0 (8.0; 18.0) | 12.0 (8.0; 14.0) | 13.0 (11.0; 15.0) | .852 | .063 (.55) | .750 (.29) | .500 (.43) |

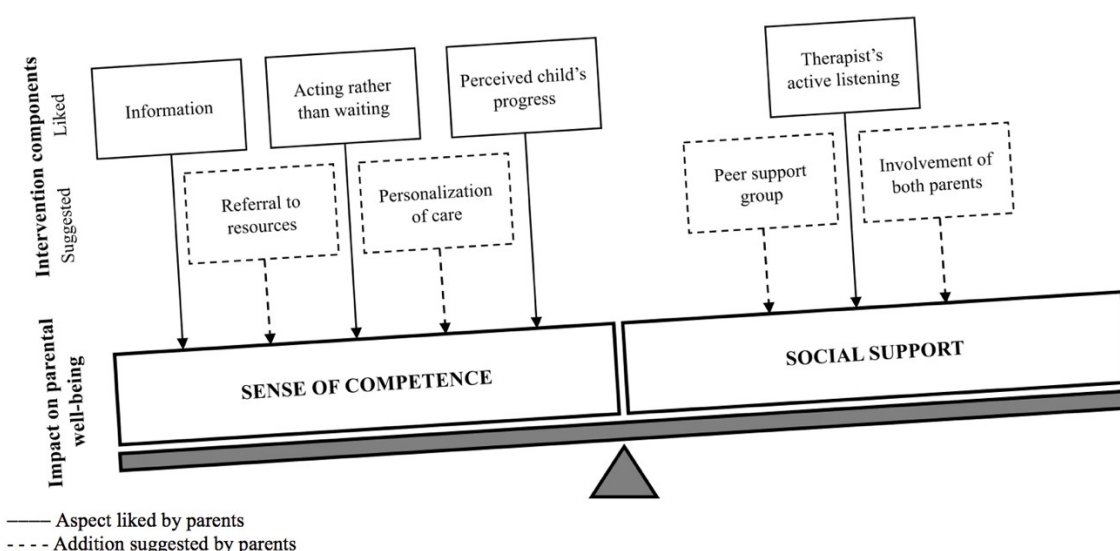
ES: Effect size

¹Friedman's nonparametric ANOVA test; ²Wilcoxon signed-ranked test (Bonferroni correction)

3.3. Parents' experience with participating in the parent-mediated intervention

Our content analysis revealed two main effects of the intervention with respect to parental well-being as reported by parents in the interviews. Figure 1 illustrates these two main themes related to components of the intervention program that the parents liked and others they suggested for inclusion in future interventions to improve the program and enhance its impact on parental outcomes.

Figure 1
Illustration of qualitative results concerning parental perspectives of their participation in the parent-mediated intervention



3.3.1 Increasing parents' sense of competence

In interviews, parents spontaneously reported an increase in parenting competence after participating in the parent-mediated intervention. For example, Arthur's mother said: *"For sure, it gave me confidence."* Among the intervention components that explained this increase in their sense of competence, parents emphasized the importance of receiving appropriate and targeted information concerning how to stimulate their child's development. As Paul's mother stated: *"The information for working with my child was very good. And the more information parents have, the easier it is to work with their child."* Parents appreciated that the therapist gave them tools to take action rather than waiting to access specialized services, as reported by James's mother: *"It's not clear what is available. It's not necessary to have a diagnosis, but rather to know what I can do to help him. I can't just sit there and*

wait [...] It's really about knowing what to do to help him." Similarly, Arthur's mother stated: *"So I got moving. I didn't stay like that, doing nothing."* This mobilization of parents in the intervention had a positive impact on parental well-being since they *"felt like [they] were doing something."* As noted by Arthur's mother, parents' perception of their child's developmental progress positively impacts parental well-being: *"It helped me [...] feel confident and work hard because I saw improvements. That helped me not to give up."* Pedro's mother also talked about the positive influence of the child's developmental improvement on parental well-being: *"With this program, it reassured me that he will improve. We always saw a small improvement over the previous week."* Pedro's mother also stressed the importance of receiving positive support from professionals rather than just targeting their child's difficulties: *"It really helped me because someone else gave me tips, things to encourage me to work with Pedro. And to see if there are improvements; that there are also positive aspects, not just negative ones."*

On the other hand, parents also pointed to some improvements that might be added to the program to increase the impact of the intervention on parenting sense of competence, including personalizing the care more and referring parents to external resources when available. Although parents generally liked the information offered to them, they also stressed that personalization of the intervention could be optimized, for example by *"looking together at the [themes, so that parents] could say 'I already do that'. And maybe we could adapt it."* (Emma's mother) She also pointed out that since each child and family have unique needs, backgrounds, and knowledge, it is essential to take the time to get to know the family even if *"it takes multiple sessions"* to maximize the benefits of the intervention. With the aim of always providing the best parent-mediated intervention possible, some parents suggested referring parents to community organizations and credible information resources, like James's mother:

"For parents who seem confused, the researcher should refer them to somewhere where they'll get help. Personally, I know I can manage. I know that if there is something, I'll be able to talk about it and find resources. But not all parents are like me [...] If they have questions or

aren't comfortable or whatever... For example, I found that there is an association for autism and they give lots of information on their website."

In fact, having access to additional relevant and reliable information to meet parents' needs might have enhanced their feeling of competence.

3.3.2 Providing social support for parents

Content analysis of the interviews also pointed up the positive impact of the social support provided through the parent-mediated intervention. Therapeutic benefits were reported simply from the therapist being there and listening, and from feeling understood. For example, James's mother described feeling isolated before participating in the program: *"We can feel alone, especially when we have other children who developed normally. You feel like an extraterrestrial."* Parents' participation in the parent-mediated intervention was marked by the *"feeling [of being] supported by others, by professionals."* (Pedro's mother) This psychosocial support offered at home by the therapist was described by Emma's mother as follows:

"First, just having someone there. Because when you are alone, even if she [the therapist] didn't do anything ("even if," I don't say that's what happened), just having someone come and help me, and that focuses on Emma. Just that aspect, beside the tools she gave me, just that helped."

However, parents still had suggestions for ways to optimize the psychosocial support offered during the intervention. One suggestion was to integrate peer support in the parent-mediated intervention. Parent support groups might help parents *"see another point of view because [they] always have their nose stuck in the problem"* (James's mother). Arthur's mother also suggested incorporating parent support groups:

"The therapist has worked with lots of children. Why not have a meeting so that we can talk [...] We can exchange ideas and get suggestions. We can discuss our child's behavior. What works and what doesn't. We'll meet people going through the same things as us, the same situation as us."

Also, during their interviews two mothers suggested involving both parents: “*maybe not at each session, but try to have both partners at some sessions so they could divide up the work fairly.*” (Paul’s mother) Pedro’s mother explained further: “*I think it could be important because sometimes I would try to explain to my husband what we had looked at that week; my husband listened to me, but it wasn’t the same as when someone else, particularly a professional, tells you something.*” These mothers suggested that by working with their partners: “*there might be less stress on the mother*”. It is important to note that while both parents were invited to participate in the parent-mediated intervention, both parents were involved in only three of the 19 participating families.

3.3.3 Delicate balance when offering parent-mediated intervention

As illustrated in Figure 1, the two main themes reported by parents following the parent-mediated intervention might conflict with each other. In fact, two parents reported their conflicting needs within the early parent-mediated intervention: 1) to increase their competence in stimulating their child’s development, and 2) to receive personal social support and vent their distress. This may result in parents neglecting some of their own needs in favor of their child’s development. For example, Elliot’s mother reported: “*Even if I was tired and blah blah blah, for my child it was good [...] That is our conscience as parents. We have to give our child what’s best.*” Similarly, Arthur’s mother suggested that even though parents might not be ready to hear about autism spectrum disorder or ways to stimulate their child, therapists should be clear with parents and point out that “*maybe you [parents] are not ready, but for your child it is very important*”. Although only two of the six families explicitly mentioned the friction between the two conflicting objectives of the parent-mediated intervention and its impact on parental well-being, all families addressed these two aspects.

3.3.4 Other suggestions made by parents to improve the intervention

Interestingly, most other suggestions spontaneously mentioned by parents during the interviews that were not discussed in detail in previous sections related to increasing the intensity and range of services to optimize their child’s stimulation. These suggestions included: 1) offering group intervention sessions for children, 2) increasing the duration of the program, 3) increasing the weekly intensity of the program, and 4) offering more direct

interventions with the child. Table 5 details parent's suggestions and excerpts from the transcripts concerning these other suggestions that should be considered by researchers and service providers designing parent-mediated interventions for young children suspected of ASD.

Table 5
Other suggestions made by parents to enhance the parent-mediated intervention

| Parents' suggestions | Transcript excerpts |
|---|--|
| Child stimulation | |
| Offering group intervention sessions for children | <i>"I want him to see other kids like him"</i> (James's mother) <i>"He needs to socialize"</i> (James's mother) <i>"Even the children. Once a week they get together. They can play together and learn from each other"</i> (Arthur's mother) |
| Increasing program duration | <i>"I would say between 6 and 9 months. Because after 3 months he can forget what we did. But between 6 and 9 months, before [starting intensive interventions]"</i> (Arthur's mother) <i>"Because sometimes it's like he forgot everything and we have to start over to help him"</i> (Arthur's mother) |
| Increasing program intensity | <i>"Maybe twice a week would be helpful"</i> (Pedro's mother) <i>"This isn't enough. More time. I want more"</i> (Paul's mother) <i>"Having sessions that last at least 3 hours"</i> (Paul's mother) |
| Offering more direct intervention with the child | <i>"Something I would have liked is maybe having one hour with the parent and one hour [with the child]"</i> (Pedro's mother) |
| Research procedures | |
| Limiting the number of forms to complete | <i>"The form we had to fill out was a pain in the ass [...]. Applying things wasn't a problem, trying the tools she gave me wasn't a problem. But having to write when I did it [...] it was approximate what I did."</i> (Emma's mother) <i>"A verbal report. Obviously I tried things and I remembered what happened. Maybe not everyone is like me but personally a verbal report was sufficient."</i> (Emma's mother) |

The final suggestion made by parents concerned the research procedure. They said it was a burden to complete all the forms, especially a written daily report on implementation of the

week's strategy in their daily routines. One mother suggested reporting verbally at each intervention session on how they implemented the strategies in their daily life during the previous week. This verbal report was considered a more realistic, less time-consuming way to report on strategy implementation.

4. Discussion

Overall, this study found a high degree of parental satisfaction with the parent-mediated intervention, particularly in relation to the parents' perception of their child's development, the educational support offered, the strategies learned, and the feeling of being listened to and understood by the therapist. However, parents also highlighted the conflict they felt between improving their skills and confidence in stimulating their child with special needs and reaching out for social support to help them get through the stressful period surrounding the diagnosis of their child.

Concerning the impact of the intervention on parental well-being, quantitative data revealed a stabilizing effect on parenting sense of competence compared to a decrease in parents' self-reported efficacy during the waiting period. This result corresponds to the qualitative results pointing to an increase in parents' feeling of confidence as a result of receiving information that helped them take action instead of just waiting for services. These positive effects on parents' sense of competence may be partly attributable to the reassuring presence of the therapist (38), the focus on parents' cognition (39), and the positive feedback given to parents during the intervention sessions. These results contrast with the only other study reporting the effect of a parent-mediated intervention also based on the P-ESDM (11). Even though Estes et al. reported no effect on parenting sense of competence, they observed a stabilization of parental stress in the intervention group compared to an increase in the control group. A similar impact, but on different parental well-being variables, was documented in these two studies. In our study, no significant effect of the intervention was observed on parental stress. This might be because the parent-mediated intervention in our study did not specifically target parental stress (5). Instead, the focus of the intervention was on helping parents develop strategies so they can act as a mediator to stimulate their child in their daily life. Knowing that parents of children with ASD mainly rely on other parents of children with ASD for

information and support (40), the inclusion of parent support groups, as suggested by parents in the interviews, could optimize the impact on parental well-being. This combination of individual and group sessions has been used before (12). Nevertheless, caution is called for in parent-mediated interventions using both group and individual sessions and personalized emotional and informational support should be offered to prevent parents from feeling overwhelmed (12). In fact, it is widely recognized that no single intervention would work for all children and families due to the nature and complexity of ASD and wide variety of family situations. Therefore, early interventions should be adapted to each child's strengths and weaknesses as well as family circumstances (41), especially around the time of the diagnosis (38). Brookman-Frazee and Koegel (42) also suggested that mothers' stress level decreased and their confidence increased in interventions focusing on the parent/clinician partnership but not when interventions were clinician-directed. Thus, offering interventions that are more parent-led might also optimize the effect of the parent-mediated interventions on parental outcomes.

In regard to the delicate balance that parents struggle to find between being empowered to stimulate their child and being provided with social support, one important aspect to consider in the personalization of care is the parents' stage of adaptation to their child's special needs. Since the participants in our study were recruited very early in the diagnostic process, even before the diagnosis was confirmed, parents in this sample were often in the initial stage of adapting to their child's difference (43). Thus, parents at different stages of adapting to their child's diagnosis might need a different balance between being empowered and being supported. Also, the diagnostic ambiguity, complexity, unpredictability, and inexplicability related to having a child suspected of ASD all limit parents' psychological adjustment (44). This particular characteristic of our sample might also explain the limited impact of the intervention observed on parental well-being.

Moreover, the limited statistically significant quantitative results of the parent-mediated intervention compared to parental reports in the interviews might be partly due to the very small sample size and limited power and to limitations related to the assessment tools, particularly the PSI-SF. Although the PSI-SF has been validated for low income and

culturally diversified families (45, 46), some authors have raised concerns about the use of two subscales (Parent-Child Dysfunctional Interaction and Difficult Child) with parents of children with ASD (47). Based on the definition of parental stress by McStay and colleagues that refers to “the pressures solely associated with raising a child with ASD (i.e. parent’s perceptions of their parenting skills)” (48), only the Parenting Distress subscale should be used with parents of children with ASD. Interestingly, this subscale is the only one that showed a trend toward improvement in the intervention period in our merged sample. This highlights the potential positive effect of the intervention on parents’ perceptions of their parenting skills that might assist parents in their role of stimulating their child’s development (48). Based on parents’ interviews, other outcomes should be used in future studies to measure the effect of parent-mediated interventions on parental outcomes. Given that parents highlighted the importance of the social support offered through the intervention program, the perceived helpfulness of available support could be measured with the Family Support Scale (49). Previous studies also noted the crucial role of social support as one of the main protective factors for the parents of children with ASD (50).

In conclusion, parents were positive about being involved in stimulating their child and liked being able to take action, which gave them a sense of competence, rather than just waiting for specialized services as they would normally have done. However, the limited psychosocial support specifically targeting parental well-being might explain the intervention’s lack of effect on parental stress. Thus, there is a delicate balance for service providers to find between offering services specifically targeting parental well-being and stimulating their child.

Disclosure Policy

The authors declare that there is no conflict of interest regarding the publication of this paper.

References

1. Rodrigue JR, Morgan SB, Geffken G. Families of autistic children: Psychological functioning of mothers. *Journal of clinical child psychology*. 1990;19(4):371–9.
2. Estes A, Munson J, Dawson G, Koehler E, Zhou X-H, Abbott R. Parenting stress and psychological functioning among mothers of preschool children with autism and developmental delay. *Autism*. 2009 Jul 1;13(4):375–87.
3. Dumas JE, Wolf LC, Fisman SN, Culligan A. Parenting stress, child behavior problems, and dysphoria in parents of children with autism, Down syndrome, behavior disorders, and normal development. *Exceptionality: A Special Education Journal*. 1991;2(2):97–110.
4. Hamlyn-Wright S, Draghi-Lorenz R, Ellis J. Locus of control fails to mediate between stress and anxiety and depression in parents of children with a developmental disorder. *Autism*. 2007 Nov;11(6):489–501.
5. Estes A, Hus V, Elder L. Family Adaptive Functioning in Autism. In: *Autism spectrum disorders*. Amaral, D. G., Dawson, G. & Geschwind, D. H. New York, NY: Oxford University Press; 2011. p. 1182–95.
6. Zwaigenbaum L, Bryson S, Lord C, Rogers S, Carter A, Carver L, et al. Clinical assessment and management of toddlers with suspected autism spectrum disorder: insights from studies of high-risk infants. *Pediatrics*. 2009;123(5):1383–1391.
7. Beaudoin AJ, Sébire G, Couture M. Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Autism Research and Treatment*. 2014;2014:1–15.
8. Wong VCN, Kwan QK. Randomized Controlled Trial for Early Intervention for Autism: A Pilot Study of the Autism 1-2-3 Project. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2010 Jun;40(6):677–88.
9. Kasari C, Gulsrud A, Paparella T, Hellemann G, Berry K. Randomized comparative efficacy study of parent-mediated interventions for toddlers with autism. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*. 2015;83(3):554–63.

10. Drew A, Baird G, Baron-Cohen S, Cox A, Slonims V, Wheelwright S, et al. A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*. 2002 Dec 1;11(6):266–72.
11. Estes A, Vismara L, Mercado C, Fitzpatrick A, Elder L, Greenson J, et al. The Impact of Parent-Delivered Intervention on Parents of Very Young Children with Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2014 Feb;44(2):353–65.
12. Patterson SY, Smith V. The Experience of Parents of Toddlers Diagnosed With Autism Spectrum Disorder in the More Than Words Parent Education Program: Infants & Young Children. 2011;24(4):329–43.
13. Beaudoin AJ, Mestari Z, Sébire G, Couture M. A parent-mediated intervention increasing parent-child engagement in play and impacting evolution of toddlers' development outcomes: A randomized crossover trial. submitted;
14. Creswell JW. *Research design: Qualitative, quantitative, and mixed methods approaches*. Sage publications; 2013.
15. Tashakkori A, Creswell JW. Editorial: The New Era of Mixed Methods. *Journal of Mixed Methods Research*. 2007 Jan;1(1):3–7.
16. Wetherby AM, Brosnan-Maddox S, Peace V, Newton L. Validation of the Infant--Toddler Checklist as a broadband screener for autism spectrum disorders from 9 to 24 months of age. *Autism*. 2008 Sep 1;12(5):487–511.
17. Robins DL, Casagrande K, Barton M, Chen C-MA, Dumont-Mathieu T, Fein D. Validation of the modified checklist for autism in toddlers, revised with follow-up (M-CHAT-R/F). *Pediatrics*. 2014;133(1):37–45.
18. Luyster R, Gotham K, Guthrie W, Coffing M, Petrak R, Pierce K, et al. The Autism Diagnostic Observation Schedule—Toddler Module: A New Module of a Standardized Diagnostic Measure for Autism Spectrum Disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*. 2009 Sep;39(9):1305–20.

19. Rutter M, Le Couteur A, Lord C. ADI-R: Autism diagnostic interview-revised WPS edition. Los Angeles: Western Psychological Services; 2003.
20. Rogers SJ, Dawson G, Vismara LA. *An Early Start for Your Child with Autism: Using Everyday Activities to Help Kids Connect, Communicate, and Learn*. New York, NY: The Guilford Press; 2012. 342 p.
21. Prizant BM, Wetherby AM, Rubin E, Laurent AC. The SCERTS Model: A Transactional, Family-Centered Approach to Enhancing Communication and Socioemotional Abilities of Children With Autism Spectrum Disorder. *Infants & Young Children*. 2003;16(4):296.
22. Vismara LA, Colombi C, Rogers SJ. Can one hour per week of therapy lead to lasting changes in young children with autism? *Autism*. 2009 Jan 1;13(1):93–115.
23. Vismara LA, Rogers SJ. The Early Start Denver Model: A Case Study of an Innovative Practice. *Journal of Early Intervention*. 2008 Sep 10;31(1):91–108.
24. Attkisson CC, Zwick R. The Client Satisfaction Questionnaire: Psychometric properties and correlations with service utilization and psychotherapy outcome. *Evaluation and program planning*. 1982;5(3):233–237.
25. Leichner P, Perreault M. Développement et validation d’une échelle multidisciplinaire de satisfaction de patients de services d’hospitalisation en psychiatrie. Centre de Psychiatrie communautaire: Centre hospitalier Douglas; 1990.
26. Law M, Hanna S, King G, Hurley P, King S, Kertoy M, et al. Factors affecting family-centred service delivery for children with disabilities. *Child: Care, Health and Development*. 2003;29(5):357–66.
27. Schaaf RC, Hunt J, Benevides T. Occupational Therapy Using Sensory Integration to Improve Participation of a Child With Autism: A Case Report. *American Journal of Occupational Therapy*. 2012 Sep 1;66(5):547–55.

28. Johnston C, Mash EJ. A measure of parenting satisfaction and efficacy. *Journal of clinical child psychology*. 1989;18(2):167–75.
29. Terrisse B, Trudelle D. Questionnaire d’autoévaluation de la compétence éducative parentale (QAECEP). Adaptation et traduction du Parenting sense of competence (1977). 1988.
30. Gilmore L, Cuskelly M. Factor structure of the Parenting Sense of Competence scale using a normative sample. *Child: Care, Health and Development*. 2009 Jan;35(1):48–55.
31. Donenberg G, Baker BL. The impact of young children with externalizing behaviors on their families. *Journal of Abnormal Child Psychology*. 1992;21(2):179–98.
32. Abidin RR. Parenting stress index-short form. Charlottesville, VA: Pediatric Psychology Press; 1990.
33. Bigras M, LaFreniere PJ, Abidin RR. Indice de stress parental: manuel francophone en complément à l’édition américaine. Multi-Health System; 1996.
34. Baker-Ericzén MJ, Brookman-Frazee L, Stahmer A. Stress levels and adaptability in parents of toddlers with and without autism spectrum disorders. *Research and practice for persons with severe disabilities*. 2005;30(4):194–204.
35. Miles MB, Huberman AM, Saldana J. *Qualitative data analysis: A methods sourcebook*. Thousand Oaks, California: Sage publications; 2014.
36. Rossman GB, Rallis SF. *Learning in the field: An introduction to qualitative research*. Thousand Oaks, California: Sage Publications; 1998.
37. Beaudoin AJ, Sébire G, Couture M. How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model. in redaction;

38. Keen D, Couzens D, Muspratt S, Rodger S. The effects of a parent-focused intervention for children with a recent diagnosis of autism spectrum disorder on parenting stress and competence. *Research in Autism Spectrum Disorders*. 2010 Apr;4(2):229–41.
39. Kuhn JC, Carter AS. Maternal self-efficacy and associated parenting cognitions among mothers of children with autism. *American Journal of Orthopsychiatry*. 2006;76(4):564.
40. Mackintosh VH, Myers BJ, Goin-Kochel RP. Sources of information and support used by parents of children with autism spectrum disorders. *Journal on Developmental Disabilities*. 2005;12(1):41–51.
41. Roberts JMA, Prior MR, Australia, Department of Health and Ageing. A review of the research to identify the most effective models of practice in early intervention for children with autism spectrum disorders. Canberra: Dept. of Health and Ageing; 2006.
42. Brookman-Frazee L, Koegel RL. Using parent/clinician partnerships in parent education programs for children with autism. *Journal of positive behavior interventions*. 2004;6(4):195–213.
43. Kübler-Ross E. *On death and dying*. New York: Macmillan; 1969.
44. Negri L, Castorina L. Family Adaptation to a Diagnosis of Autism Spectrum Disorder. In: Tarbox J., Dixon D., Sturmey P., Matson J. (eds). New York, NY: Springer; 2014. (Autism and Child Psychopathology Series; vol. Handbook of Early Intervention for Autism Spectrum Disorders).
45. Whiteside-Mansell L, Ayoub C, McKelvey L, Faldowski RA, Hart A, Shears J. Parenting Stress of Low-Income Parents of Toddlers and Preschoolers: Psychometric Properties of a Short Form of the Parenting Stress Index. *Parenting*. 2007 Feb;7(1):26–56.
46. Reitman D, Currier RO, Stickle TR. A Critical Evaluation of the Parenting Stress Index-Short Form (PSI-SF) in a Head Start Population. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*. 2002 Aug;31(3):384–92.

47. Zaidman-Zait A, Mirenda P, Zumbo BD, Wellington S, Dua V, Kalynchuk K. An item response theory analysis of the Parenting Stress Index-Short Form with parents of children with autism spectrum disorders: Parenting Stress Index item analysis. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*. 2010 Nov;51(11):1269–77.
48. McStay RL, Dissanayake C, Scheeren A, Koot HM, Begeer S. Parenting stress and autism: The role of age, autism severity, quality of life and problem behaviour of children and adolescents with autism. *Autism*. 2014;18(5):502–510.
49. Smith TB, Oliver MN, Innocenti MS. Parenting stress in families of children with disabilities. *American journal of orthopsychiatry*. 2001;71(2):257.
50. Luther EH, Canham DL, Young CV. Coping and social support for parents of children with autism. *The Journal of school nursing: the official publication of the National Association of School Nurses*. 2005;21(1):40–7.

CHAPITRE 5. DISCUSSION

Considérant que les résultats de la présente thèse ont été discutés au fur et à mesure dans les articles présentés précédemment, ce chapitre offrira une vision intégratrice d'ensemble de mon doctorat. Il est divisé en quatre sections, soit 1) l'analyse sommaire des effets du programme d'accompagnement parental en comparaison avec aux autres programmes étudiés dans la littérature, 2) l'interprétation macroscopique des données basée sur le modèle logique de l'intervention, 3) la présentation des forces, limites et retombées cliniques de l'intervention et 4) l'analyse critique des forces, limites et retombées scientifiques du projet de recherche.

5.1 Sommaire des effets du programme d'accompagnement parental par rapport aux autres programmes étudiés dans la littérature

Les résultats présentés dans les deux articles du chapitre 4 mettent en lumière des effets directs du programme d'accompagnement parental à la fois sur les variables d'interaction parent-enfant, sur le développement de l'enfant ainsi que sur le bien-être parental. Malgré la quasi-absence de différence inter-groupe, les améliorations notées lors de l'intervention soulignent la pertinence de ce programme d'accompagnement parental. De fait, dans le tableau 10, le programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse est comparé aux trois programmes ciblant les jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA ayant été le plus largement utilisés et étudiés dans la littérature scientifique. Afin de faciliter la comparaison des résultats, la tableau 10 regroupe uniquement les résultats provenant d'essais cliniques randomisés concernant les programmes d'accompagnement parental du ESDM (Estes et al., 2014; Rogers et al., 2012a), du iBASIS-VIPP (Green et al., 2015, 2017) et du *Joint Attention, Symbolic Play, Engagement, and Regulation* (JASPER) (Gulsrud et al., 2016; Kasari et al., 2015).

Tableau 10

Comparaison du programme d'accompagnement parental aux autres programmes populaires pour les enfants de moins de trois ans avec une suspicion ou un diagnostic de TSA

| Modèle d'accompagnement parental (Références) | Modalités d'intervention Intensité Clientèle cible Âge Lieu Suivi | Effets des programmes d'accompagnement parental | | | | | | | | | | | | | | | | |
|--|---|---|-------------------|------------------|---------------|-----------|----------|----------|-----------------|---------------|-----------|------------|--------------|----------|-----------------|---------------------|------------------|--|
| | | Parent-enfant | | | Enfant | | | | | | | | | Parent | | | | |
| | | Engagement enfant | Engagement parent | Durée engagement | Communication | Cognition | Moteur | Jeu | Cpts adaptatifs | Développement | Symptômes | Diagnostic | Implantation | Stress | Auto-efficacité | Relation thérapeute | Validité sociale | |
| Adaptation ESDM et SCERT (Beaudoin et al., soumis a; soumis b) | 12 int, 12 sem (60-90min) Suspicion de TSA 12-30 mois Maison Suivi : 3 mois | P± SØ | | | | P± SØ | P+ SØ | | P± SØ | | | | P± S± | PØ | P± | | P+ | |
| ESDM (Estes et al., 2014; Rogers et al., 2012a) | 10 int, 10 sem (60 min) Suspicion de TSA 14-24 mois Clinique Suivi : aucun | | | | PØ | | | | PØ | PØ | PØ | | P± | P± | PØ | P+ | | |
| iBASIS-VIPP (Green et al., 2015, 2017) | 12 int, 5 mois (90 min) Fratricie (à risque) 7-10 mois Maison Suivi : 2 ans | P± | P± | | PØ SØ | | | | | | P± S+ | SØ | | | | | | |
| JASPER (Gulsrud et al., 2016; Kasari et al., 2015) | 12 int, 12 sem (90 min) Diagnostic de TSA 22-36 mois Maison Suivi : 6 mois | P+ SØ | | P+ SØ | PØ SØ | | | P± S± | | | | | P+ | P- SØ | | | | |

Légende

Temps d'évaluation : Post-intervention (P); Suivi(S)

Effet de l'intervention : Positif (+); Mixte (±); Nul (Ø); Négatif (-)

L'analyse des données présentées au tableau 10 met en évidence l'apport du projet doctoral à la littérature scientifique actuellement disponible. Premièrement, lorsqu'on considère les effets directs des programmes d'accompagnement parental évalués à la fin de l'intervention, identifiés par un « P » dans le tableau, on remarque que les résultats sur les variables du développement de l'enfant sont plus qu'encourageants. De fait, comparativement aux autres études, le présent projet de recherche a démontré des effets prometteurs de l'intervention sur les habiletés cognitives et les habiletés motrices qui n'avaient pas été évaluées dans les autres études. De plus, les résultats mixtes au niveau des comportements adaptatifs, soit une amélioration des comportements adaptatifs sociaux sont supérieurs à ce qui a été rapporté à la suite du programme d'accompagnement parental original du ESDM (Rogers et al., 2012a). Deuxièmement, les résultats au niveau des variables parentales révèlent également des effets significatifs novateurs. Notons entre autres qu'aucune autre étude n'avait évalué la validité sociale de l'intervention. De plus, la stabilisation du sentiment de compétence parentale dans le groupe expérimental permet de préciser l'absence de changement noté à la suite du ESDM original (Estes et al., 2014). Les résultats mixtes concernant le niveau d'implantation des stratégies par les parents post-intervention soutiennent les résultats antérieurs, particulièrement par rapport aux modèles ESDM (Rogers et al., 2012a). Troisièmement, l'amélioration de la qualité des interactions parent-enfant lors de l'intervention (qui n'est toutefois pas statistiquement plus importante que l'effet de maturation observée dans le groupe contrôle) bonifie également la littérature actuelle appuyant l'effet des programmes d'accompagnement parental sur l'interaction entre le parent et son enfant (Green et al., 2015; Kasari et al., 2015).

En contrepartie, il est important de souligner que les améliorations significatives notées chez les participants recevant l'intervention n'étaient pas suffisant pour détecter des changements inter-groupe. Considérant que seuls les changements au niveau des habiletés motrices des enfants ont été statistiquement supérieur à l'évolution observée dans le groupe en attente de l'intervention, il est impératif d'évaluer avec un plus grand nombre de participants l'effet de l'intervention en comparaison au groupe contrôle afin d'isoler l'effet de l'intervention de l'effet de maturation normale.

De plus, le présent projet n'a pas été en mesure de démontrer d'effet, qu'il soit positif ou négatif, de l'intervention trois mois après la fin de l'intervention. Cette absence d'effets rapportés dans le projet doctoral doit toutefois être interprétée avec prudence considérant la taille d'échantillon très limitée à l'évaluation de suivi, limitant grandement la puissance des analyses statistiques. Il est néanmoins important de souligner que les résultats des suivis six mois (Kasari et al., 2015) et 24 mois (Green et al., 2017) soutiennent que des gains peuvent se maintenir ou même s'accroître après la fin du programme d'accompagnement parental. Encore plus intéressant est le fait que les changements notés entre l'évaluation post-intervention et celle de suivi ont été observés pour des variables pour lesquels des changements négatifs ou légers avaient été observés en post-intervention, notamment au niveau des symptômes autistiques (Green et al., 2017) et du stress parental (Kasari et al., 2015). Considérant les effets positifs rapportés dans la présente étude directement après la fin de l'intervention, il aurait été très intéressant de pouvoir évaluer avec un plus grand nombre de participants le maintien, voire l'amélioration potentielle, des différentes variables trois mois après la fin de l'intervention.

En somme, les effets de l'intervention documentés soulignent que le programme d'accompagnement évalué dans le cadre de cette thèse est un modèle prometteur qui gagnerait à continuer à être utilisé et étudié avec un plus grand échantillon. De fait, l'adaptation du modèle ESDM en ajoutant des sessions provenant du SCERTS et une rétroaction par vidéo a permis d'apporter des effets, directement après la fin de l'intervention, égaux ou supérieurs aux autres programmes comparés, et ce, autant au niveau de l'interaction parent-enfant, du développement de l'enfant, du bien-être parental et de validité sociale. Une analyse plus en profondeur des résultats et des liens entre les différentes composantes de l'intervention sera présentée dans la section 5.2 *Validité du modèle logique du programme d'accompagnement parental*.

5.2 Validité du modèle logique du programme d'accompagnement parental

Les différents effets de l'intervention rapportés seront mis à profit afin d'évaluer et adapter le modèle logique du programme d'accompagnement parental évalué dans cette thèse.

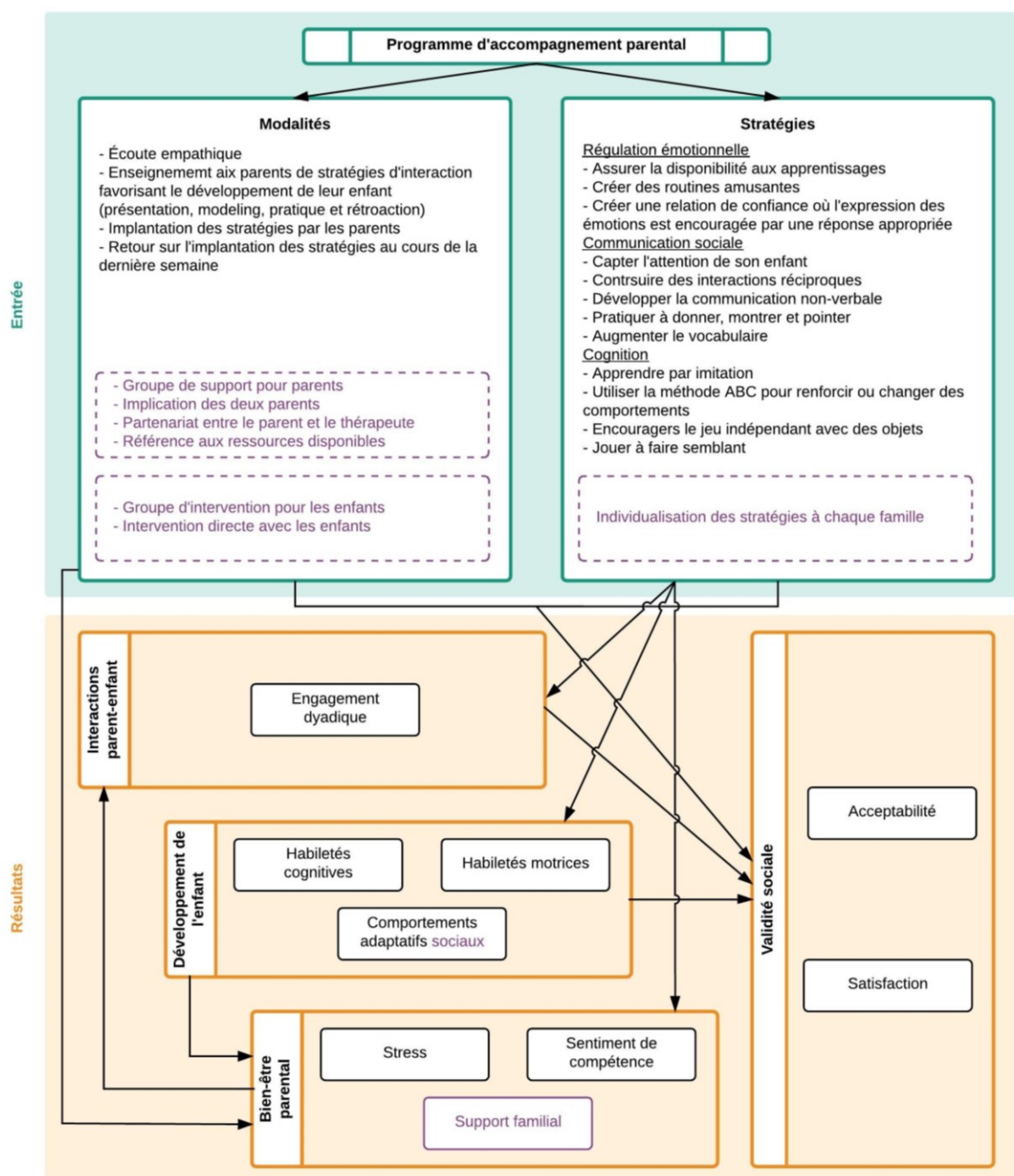
Avant d'entamer l'interprétation des données à la lumière du modèle logique de l'intervention, il est toutefois important de souligner le processus d'évaluation de programmes qui a guidé la réalisation de cette thèse. De fait, avant d'attaquer l'analyse des effets de l'intervention proprement dite, la première étape, pour répondre au but de cette thèse qui était « d'évaluer un programme d'accompagnement parental de 12 semaines pour des enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA en considérant les deux acteurs-clés, soit l'enfant avec une suspicion de TSA et son parent qui agit à titre d'agent de changement » (voir section 3.1 *Question et objectifs de recherche*) a été de développer le modèle logique du programme d'intervention. Considérant qu'aucune donnée provenant de l'expérience pratique n'était disponible au moment du développement du modèle logique, celui-ci s'est fait selon les données disponibles dans la littérature scientifique (McLaughlin & Jordan, 2004; Rossi et al., 2003). Plus spécifiquement, la recension systématique des écrits *Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder* » a permis de dresser un portrait des connaissances sur l'effet des interventions de type accompagnement parental pour des enfants âgés de trois ans ou moins ayant une suspicion ou un diagnostic de TSA. Cette analyse des données scientifiques disponibles à ce moment a notamment mis en lumière des résultats positifs au niveau de l'implantation des stratégies par les parents. Toutefois, au niveau des autres variables évaluées (c.-à-d. : interactions parent-enfant, bien-être parental et développement de l'enfant), les résultats étaient non concluants, notamment en raison de limites méthodologiques importantes dans les études disponibles (Beaudoin et al., 2014).

Considérant les limites évidentes de la littérature spécifique au TSA, je me suis inspirée, tel que proposé par Stahmer et Pellecchia (2015), des pratiques et évidences disponibles avec d'autres clientèles pédiatriques présentant des troubles psychiatriques pour développer le modèle logique de l'intervention (McLaughlin & Jordan, 2004; Rossi et al., 2003; Stahmer & Pellecchia, 2015). En fonction des résultats de l'analyse critique interprétative des écrits scientifiques présentée dans l'article 2 intitulé *How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model* (Beaudoin et al., soumis c), le modèle logique proposé met l'accent sur la dépendance des objectifs distaux (développement de l'enfant et satisfaction des parents) par rapport aux objectifs proximaux

(interactions parent-enfant et bien-être parental) de l'intervention (Paquette & Chagnon, 2000; Rossi et al., 2003). Puisqu'un seul groupe de recherche (Mahoney & Perales, 2003, 2005) a évalué les effets d'un programme d'accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA selon une théorie d'impact similaire à celle proposée dans le cadre de cette thèse, les évidences scientifiques supportant la vraisemblance du modèle logique étaient limitées. Malgré cela, en décomposant les différentes étapes de la chaîne causale (Rossi et al., 2003), l'analyse des relations de façon individuelle a ainsi permis de développer un programme vraisemblable en se basant sur les données empiriques disponibles pour des enfants avec ou sans trouble développemental.

En plus de permettre de développer un programme d'intervention pertinent, cohérent et vraisemblable, le développement d'un modèle logique a également permis de moduler la deuxième et principale partie de cette thèse qui avait pour but d'évaluer les effets de l'intervention. En effet, la représentation visuelle de la logique du programme d'accompagnement parental (Haccoun & McDuff, 2012) a permis de guider la collecte et l'analyse des données afin de répondre aux différents objectifs de recherche (Cooksy et al., 2001; Paquette & Chagnon, 2000). Cette utilisation du modèle logique comme cadre d'analyse et d'interprétation des données avait ainsi pour objectif de démystifier la « boîte noire » de l'intervention en s'intéressant autant aux objectifs proximaux, tels la qualité des interactions parent-enfant et le bien-être parental qu'aux objectifs distaux, comme le développement des habiletés de l'enfant et la satisfaction des parents face au programme (Rossi et al., 2003). Dans le but d'analyser les résultats de façon macroscopique, c'est-à-dire en intégrant à la fois les données quantitatives et qualitatives (Creswell, 2013) afin de faire ressortir les liens entre les différents éléments du modèle logique (Rossi et al., 2003), l'interprétation des résultats présentée dans cette section sera guidée par l'adaptation du modèle logique initialement développé dans la phase de conception du projet de recherche. Ainsi, le modèle logique présenté à la section 3.2 *Hypothèse de recherche* (voir *Figure 2 Modèle logique du programme d'accompagnement parental*) a été modifié en fonction des résultats quantitatifs et qualitatifs obtenus dans la thèse. La figure 4 présente le nouveau modèle logique qui sera discuté dans les prochaines pages.

Figure 4
Modèle logique adapté du programme d'accompagnement parental



Parmi les changements majeurs apportés au modèle logique, notons premièrement la hiérarchisation des effets de l'intervention. Considérant qu'il était impossible de réaliser des analyses de régression multiple pour mettre en évidence les liens entre les différentes variables évaluées dans le cadre de ce projet en raison d'une taille d'échantillon limitée,

l'effet de l'intervention a été hiérarchisé en fonction de la force des résultats quantitatifs (signification du test statistique et taille d'effet) présentés au chapitre précédent. Ainsi, les variables sur lesquels l'intervention a eu un plus grand effet sont représentés plus hauts alors que ceux pour lesquels l'intervention a eu peu d'effets sont représentés au bas de la figure. Cette façon de représenter les différentes variables de façon hiérarchique vise ainsi à mettre en évidence les variables proximales, les plus affectées par l'intervention. La présente section détaillera l'organisation hiérarchique des quatre variables évaluées dans la thèse (c.-à-d. : interactions parent-enfant, développement de l'enfant, bien-être parental et validité sociale) ainsi que les liens illustrés dans le modèle logique (figure 4) en confrontant les données quantitatives, les résultats qualitatifs et les données de la littérature.

5.2.1 Interactions parent-enfant

À titre de rappel, l'objectif primaire de cette thèse était d'évaluer les effets du programme d'accompagnement parental sur l'engagement dyadique entre le jeune enfant à risque de TSA et son parent. Tel qu'illustré au premier niveau de la figure 4, les effets les plus importants de l'intervention ont d'ailleurs été observés sur cette variable. De fait, tel que rapporté dans l'article 3 intitulé *Parent-mediated intervention increasing parent-child engagement and improving cognitive and behavioural outcomes of toddlers with autism spectrum disorder positive screening: A randomized crossover trial* (Beaudoin et al., soumis a), le programme d'accompagnement parental évalué dans le cadre de cette thèse a démontré des résultats prometteurs sur la qualité de l'engagement dyadique entre le parent et son enfant dans des périodes de jeu tel qu'anticipé par l'équipe de recherche. Les résultats rapportés au niveau des interactions parent-enfant démontrent ainsi une amélioration significative de l'engagement dyadique suite à l'intervention, alors qu'aucun changement significatif n'était noté chez les participants en attente de l'intervention. Plus précisément, les résultats au niveau de l'interaction parent-enfant ont démontré une amélioration significative au score global de l'engagement dyadique ainsi qu'à trois des quatre sous-échelles (c.-à-d. l'engagement conjoint, le comportement de l'enfant et l'attention portée sur un sujet conjoint) après avoir participé au programme d'accompagnement parental. De plus, les tailles d'effet démontrent des différences intra-individu de modérées à élevées entre les résultats préintervention et les scores post-intervention. Il est toutefois important de souligner que les

améliorations notées au niveau de l'interaction parent-enfant dans le groupe Intervention n'étaient pas statistiquement plus importantes que l'évolution naturelle observée chez les dyades parent-enfant randomisées dans le groupe Liste d'attente au cours de ces trois mois. Ainsi l'effet direct de l'intervention, en l'isolant de l'effet de maturation, n'est pas concluant. Toutefois, considérant que des améliorations statistiquement significatives de l'interaction parent-enfant ont seulement été notées pendant la période d'intervention et pas lors des périodes de trois mois avant ou après avoir participé à l'intervention (Beaudoin et al., soumis a), il est probable qu'une étude incluant un plus grand nombre de participants permettrait d'isoler un effet de l'intervention sur la qualité de l'interaction parent-enfant.

Bien que les améliorations au niveau de l'interaction parent-enfant aient été les changements quantitatifs les plus importants, les parents ont toutefois peu discuté de cet aspect dans les entrevues individuelles. De fait, aucun parent n'a rapporté spontanément des effets sur la qualité de l'interaction avec leur enfant. Néanmoins, les entrevues individuelles ont permis de mettre en évidence des associations entre ces interactions parent-enfant et les autres composantes du modèle logique. Tel qu'illustré à la figure 4, des liens possibles ont été nommés par les parents entre 1) les stratégies et l'interaction parent-enfant et 2) l'interaction parent-enfant et la validité sociale.

Ainsi, certains parents ont spontanément rapporté un lien entre les stratégies apprises lors des séances d'intervention et les interactions avec leur enfant. Par exemple, certains parents rapportaient que la mise en place des différentes stratégies leur a permis de mieux savoir comment interagir avec leur enfant. Ces stratégies ont ainsi permis aux parents de se mettre en action et d'agir directement avec leur enfant plutôt que d'attendre de recevoir les services spécialisés usuels (Beaudoin et al., soumis b). En fonction des propos des parents et de la généralisation des acquis décrite par Kashinath et collègues (2006), on peut donc émettre l'hypothèse que l'utilisation des stratégies dans le quotidien des familles a facilité les interactions entre le parent et l'enfant en l'absence du thérapeute.

À l'instar des études antérieures s'intéressant à des programmes d'accompagnement parental pour des enfants de trois ans et moins avec un diagnostic ou une suspicion de TSA ayant

rapporté des hauts niveaux d'implantation des stratégies par les parents (Beaudoin et al., 2014), un niveau modéré d'implantation des stratégies a été observé lors des séances de jeu non structuré entre le parent et son enfant dans le présent projet de recherche (Beaudoin et al., soumis a). De plus, les parents ayant complété l'entrevue dans le cadre de cette thèse ont fréquemment mentionné avoir trouvé facile d'implanter les stratégies dans leur vie quotidienne. Cette facilité d'utilisation des stratégies au quotidien qui se reflète par des interactions de qualité entre le parent et son enfant est un indicateur majeur de l'acceptabilité de l'intervention perçue par les parents. De fait, en mettant de l'avant des stratégies facilement implantables dans la vie familiale, l'intervention n'était pas perçue par les parents comme un fardeau supplémentaire, mais plutôt comme des astuces faciles à utiliser dans les interactions quotidiennes avec leur enfant (Beaudoin et al., soumis b).

5.2.2 Développement de l'enfant

Au deuxième niveau du modèle logique est dorénavant représenté le développement de l'enfant. Malgré une hypothèse prudente émise (voir section 3.2 *Hypothèse de recherche*) quant à l'effet du programme d'accompagnement parental de trois mois sur le développement des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA, des améliorations surprenantes ont été rapportées à la fois via les évaluations quantitatives ainsi que dans les entrevues qualitatives avec les parents. De fait, des améliorations modérées et statistiquement significatives sont rapportées au niveau des habiletés cognitives, des habiletés motrices et des comportements adaptatifs sociaux (Beaudoin et al., soumis a). De plus, ces améliorations suite à la participation de la famille au programme d'accompagnement parental ont mis en évidence une normalisation de la trajectoire développementale des enfants ayant un TSA. En effet, en plus de s'améliorer par rapport à leur résultat préintervention, les enfants ayant bénéficié du programme d'accompagnement parental cessaient d'accentuer leur écart par rapport à leurs pairs sans TSA en ce qui a trait aux habiletés motrices et aux comportements adaptatifs sociaux. Tel qu'illustré dans la figure 4, les stratégies abordées avec les parents peuvent expliquer, du moins en partie, les changements observés chez l'enfant, particulièrement en ce qui a trait aux comportements adaptatifs sociaux et aux habiletés cognitives.

Parmi les liens entre le développement de l'enfant et les autres composantes du modèle logique représenté à la figure 4, notons que les parents ont spontanément mis en évidence des relations entre 1) les stratégies enseignées et le développement de l'enfant, 2) les modalités d'intervention et le développement de l'enfant, 3) les améliorations au niveau du développement de l'enfant et le bien-être parental ainsi que 4) les changements au niveau du développement de l'enfant et la validité sociale du programme.

Premièrement, au niveau de l'association entre les stratégies enseignées et le développement des habiletés des enfants, les parents ont spontanément mentionné avoir perçu des changements chez leur enfant au niveau des habiletés sociocommunicatives lors de l'entrevue, notamment en ce qui a trait à l'attention portée à l'enfant lors des périodes de jeu. Ces améliorations concordent avec les résultats quantitatifs collectés via un questionnaire complété par les parents qui a mis en évidence une amélioration des comportements adaptatifs sociaux, incluant les loisirs (ex. : jeu seul, avec son parent et avec des pairs) et les aptitudes sociales (ex. : partage d'émotions, relation intime avec ses proches, application des normes sociales), chez les enfants recevant l'intervention à un rythme similaire aux enfants sans trouble neurodéveloppemental alors que l'écart avec les pairs augmentait chez les enfants en attente de l'intervention selon un questionnaire complété par les parents (Beaudoin et al., soumis a). Ces améliorations qualitatives et quantitatives au niveau des habiletés sociocommunicatives de l'enfant reflètent d'ailleurs l'importance accordée dans l'intervention sur les stratégies visant le développement des compétences de communication et d'interactions sociales de l'enfant. De fait, tel qu'illustré au tableau 6 (voir section 4.3.1 *Programme d'accompagnement parental*), cinq des 12 séances d'accompagnement parental ciblaient précisément la stimulation des compétences de communication sociale chez leur enfant.

Une amélioration modérée, mais non statistiquement significative, des habiletés cognitives après la période d'intervention a également été observée par évaluation directe avec l'enfant, diminuant ainsi l'écart avec les enfants au développement typique de même âge. Ainsi, les quatre stratégies ciblant spécifiquement le développement des habiletés cognitives des enfants semblent avoir eu des effets bénéfiques modérés. Toutefois, les parents n'ont pas

rapporté spontanément ces améliorations lorsque questionnés par l'interviewer sur les effets perçus du programme d'accompagnement parental sur leur enfant. Cette absence d'effet spontanément rapporté par les parents pourrait être expliquée par le fait que les parents de jeunes enfants avec un TSA sont principalement inquiétés par les manifestations sociocommunicatives du TSA, incluant la conscience et compréhension sociale, le plaisir partagé et le contact visuel (Young et al., 2003). Considérant ces préoccupations importantes au niveau des habiletés sociocommunicatives, il est probable que les parents remarquent ainsi davantage les améliorations au niveau des habiletés sociales et communicatives que celles qui ont lieu à d'autres niveaux, notamment en ce qui a trait aux changements notés dans les habiletés cognitives.

Malgré une amélioration des habiletés motrices des enfants participant au programme d'accompagnement parental, les parents n'ont également pas abordé ces améliorations au niveau moteur et cognitif dans les entrevues individuelles. Il est tout de même à noter que les stratégies enseignées aux parents ne ciblaient pas spécifiquement le développement des habiletés motrices de leur enfant. Ainsi, l'amélioration à ces niveaux est possiblement un effet indirect du programme d'accompagnement parental. De fait, en facilitant l'interaction entre le parent et son enfant et en encourageant les parents à prendre du temps pour jouer avec leur enfant, les parents ont possiblement stimulé le développement de leur enfant sur une variété de plans, notamment au niveau moteur. Ainsi, l'amélioration observée au plan moteur est possiblement un effet indirect de la stimulation des enfants par les parents via le jeu (Ginsburg et al., 2007).

Deuxièmement, certaines modalités d'intervention utilisées par les thérapeutes tels l'avis d'un professionnel neutre et externe ainsi que l'accent mis sur les succès de la famille peuvent avoir contribué à une vision positive de l'enfant et de son développement chez les parents (Beaudoin et al., soumis b). De fait, l'utilisation de telles modalités d'intervention permettait aux thérapeutes de refléter les changements chez l'enfant que les parents n'avaient pas toujours observés.

Troisièmement, la normalisation des habiletés développementales de l'enfant par rapport aux pairs non-TSA (stabilisation des scores standards chez les enfants recevant l'intervention plutôt qu'une diminution de ces scores chez les enfants en attente de l'intervention) de l'enfant ont également influencé le bien-être parental. En effet, lors des entrevues, les parents ont mis en lumière que l'importance des gains développementaux perçus chez leur enfant sur leur permettait d'augmenter la motivation du parent à continuer à utiliser les différentes stratégies puisque qu'ils avaient le sentiment d'être utile et de faire la bonne chose pour leur enfant. De plus, les changements perçus chez les enfants étaient grandement liés à un sentiment d'espoir chez les parents. Les parents ont rapporté qu'ils avaient alors confiance que leur enfant pouvait progresser et qu'ils pouvaient aider leur enfant à le faire (Beaudoin et al., soumis b). En d'autres mots, les résultats de cette thèse mettent l'accent sur la perception de changements chez les parents face au développement de l'enfant afin d'améliorer les variables parentales. Ce lien entre le développement de l'enfant et les variables parentales avait également été suggéré par Estes et collaborateurs (2014) à la suite de l'évaluation du programme d'accompagnement parental du ESDM. Toutefois, peu de données sont actuellement disponibles pour confirmer cette hypothèse.

Finalement, les entrevues ont mis en évidence un lien important entre les changements perçus par les parents au niveau du développement de leur enfant et la satisfaction face au programme. De fait, dans les entrevues, les parents se référaient majoritairement aux changements qu'ils avaient observés chez leur enfant pour juger de leur satisfaction face au programme d'accompagnement parental. À l'instar de ce qui a été rapporté par les parents ayant participé au programme *More than Words*, les parents justifiaient leur haut niveau de satisfaction face au programme d'accompagnement parental « comme un bon point de départ pour leur apprentissage (traduction libre) » (Patterson & Smith, 2011) concernant les moyens pour aider leur enfant.

5.2.3 Bien-être parental

Les variables liées au bien-être des parents ont été placées au troisième niveau du modèle logique illustré à la figure 4. De fait, malgré une hypothèse initiale qui plaçait le bien-être parental comme une variable proximale, les effets de l'intervention sur le stress parental et le sentiment de compétence parentale rapportée dans cette thèse étaient limités. De fait, les

résultats quantitatifs n'ont rapporté que peu de changements liés au bien-être parental après la participation au programme d'accompagnement parental à l'exception d'une stabilisation du sentiment de compétence parentale chez le groupe expérimental (Beaudoin et al., soumis b). Cette stabilisation du sentiment de compétence parentale suite à l'intervention est possiblement expliquée par les stratégies et connaissances que les parents ont acquises via le programme d'accompagnement parental. En général, les parents ont jugé utiles les stratégies qui leur étaient enseignées (Beaudoin et al., soumis b). Par contre, deux parents ont mis en évidence un besoin d'individualiser davantage l'intervention en fonction des connaissances antérieures des différentes familles. De fait, des parents avec plus de connaissances ont rapporté que certaines stratégies que le thérapeute a abordées avaient déjà été essayées et ne fonctionnaient pas ou elles étaient déjà connues et mises en place. En ciblant des connaissances et stratégies adaptées à chaque famille, le thérapeute pourrait ainsi optimiser l'effet du programme d'accompagnement parental sur le sentiment de compétence parental, notamment pour les familles plus outillées au début de la prise en charge.

Dans le même ordre d'idée, il est également important de souligner la relation entre les modalités d'intervention et les variables parentales. Premièrement, le programme évalué dans le cadre de cette thèse était majoritairement dirigé par le thérapeute, c'est-à-dire que les thérapeutes suivaient un manuel d'intervention, limitant la possibilité du parent de prendre le contrôle de l'intervention en fonction de ses besoins spécifiques. Tel que proposé par Brookman-Frazee et Koegel (2004), l'intervention structurée par le thérapeute peut avoir limité les effets bénéfiques de l'accompagnement parental sur le stress et le sentiment de compétence des parents. De fait, leur étude a mis en évidence une diminution du stress rapporté par les mères et une augmentation du sentiment de compétence après les périodes d'intervention où le parent et le thérapeute collaboraient. À l'opposée, aucun changement au niveau du bien-être parental n'a été rapporté lors des interventions dirigées par le clinicien (Brookman-Frazee & Koegel, 2004). Deuxièmement, les différentes modalités d'intervention mises à profit lors de l'intervention visaient principalement à développer les habiletés des parents à stimuler le développement de leur enfant (programme médié par les parents), et non pas à apporter du soutien émotionnel, psychologique et social aux parents (programme de soutien aux parents). Cet accent mis davantage sur le développement de

l'enfant à défaut du soutien aux parents illustré à la figure 1 de l'article 4 *Effect of a parent-mediated intervention for toddlers suspected of autism spectrum disorder on parental well-being: A mixed methods study to better answer parents' needs* peut avoir limité les effets de l'intervention sur le bien-être parental. En ciblant davantage les stratégies à mettre en place par les parents pour favoriser le développement de leur enfant, il est possible que l'intervention ait, du moins pour certains parents, augmenté le fardeau lié à leur rôle de parent d'un enfant ayant des besoins spéciaux (Drew et al., 2002; Kasari et al., 2014; Wong & Kwan, 2010). Il est néanmoins important de souligner que le besoin en soutien psychosocial rapporté par les familles ayant participé au présent projet de recherche ait été accentué par le fait que les familles étaient en attente d'un diagnostic et ne recevait donc pas de soutien autre que celui offert dans le cadre du présent projet de recherche. Ainsi, l'équilibre entre le développement de stratégies et le soutien parental est sans doute influencé par le contexte des familles et leur cheminement dans l'identification et l'adaptation aux difficultés de leur enfant. Troisièmement, il est important de souligner que l'écoute active du thérapeute auprès des familles a été relevée par les parents comme une modalité d'intervention qui a favorisé le bien-être parental. D'ailleurs une étude canadienne récente a mis de l'avant l'importance plus importante accordée par les parents aux qualités du thérapeute qu'aux composantes des interventions pour leur enfant ayant un TSA (Hodgetts et al., 2013). Dans cette optique, les parents ont perçu la présence du thérapeute, son écoute et son empathie comme des éléments apportant un soutien important aux parents dans le projet doctoral. Considérant que le soutien offert aux parents n'avait pas été prévu initialement, aucune mesure quantitative n'a toutefois été collectée à ce niveau.

Pour ce qui est de l'association entre le bien-être parental et la validité sociale du programme illustrée à la figure 4, les parents ont encore une fois souligné leur important besoin du point de vue du soutien social. Ce besoin important de soutien spontanément rapporté par les parents peut être accentué par le fait que l'intervention évaluée dans le cadre de cette thèse était une intervention très précoce offerte aux familles avant même de recevoir un diagnostic de TSA pour l'enfant. Ainsi, les familles n'avaient généralement reçu que peu voire pas de services jusqu'à présent. Dans cette optique, les entrevues ont mis en évidence la possibilité d'augmenter le soutien aux parents afin de répondre à ce besoin important, et améliorant ainsi

la satisfaction des parents envers l'intervention reçue. À l'instar de ce qui est fait dans d'autres programmes d'accompagnement parentaux auprès de familles ayant un jeune enfant avec un TSA, les parents ont notamment proposé d'ajouter des rencontres de groupe (Carter et al., 2011; Patterson & Smith, 2011; Wetherby & Woods, 2006). L'intégration de rencontres de groupe aux rencontres individuelles déjà en places offrirait un espace d'échange avec des parents vivant une situation similaire.

Finalement, le bien-être parental a été relié dans le modèle logique aux interactions entre le parent et son enfant. Cette flèche représente un bénéfice majeur de l'intervention rapporté par les parents; l'augmentation du sentiment de compétence, qui se manifestait par un sentiment de confiance des parents, a accru leur motivation à utiliser les stratégies dans leurs interactions quotidiennes avec leur enfant. Tel que proposé par Sanders et Woolley, le sentiment de compétence est ainsi lié aux interactions avec l'enfant (Sanders & Woolley, 2005). Plus précisément, en se sentant outillés, les parents ayant participé au programme d'accompagnement parental de 12 semaines étaient portés à s'impliquer davantage dans les activités de leur enfant tel le jeu.

5.2.4 Validité sociale

La validité sociale évaluée par l'acceptabilité et la satisfaction des parents face au programme de trois mois auxquels ils ont participé a également été déplacée dans la représentation graphique du modèle logique. Alors que le modèle initial représentait la validité sociale à un dernier niveau, laissant supposer que les parents jugeaient de la validité sociale en fonction des résultats à la toute fin de l'intervention de trois mois, la représentation transversale de la validité sociale à la figure 4 met en lumière l'aspect continu de l'évaluation de la validité sociale du programme par les parents. De plus, la représentation de la validité sociale sur les trois niveaux d'action a pour but de mieux représenter le fait que les parents jugeaient de la validité du programme en fonction des résultats perçus sur l'ensemble des autres variables étudiées dans le cadre de cette thèse.

Considérant que les liens entre les interactions parent-enfant, le développement de l'enfant, le bien-être parental et la validité sociale ont été préalablement discutés, seul le lien entre les stratégies et la validité sociale sera détaillé. À ce niveau, les parents ont premièrement mis

en lumière que les stratégies discutées dans les séances d'intervention étaient liées au niveau de satisfaction de ceux-ci face à l'intervention. En effet, en plus de rapporter un haut niveau de satisfaction, qui coïncide avec les études antérieures (Brian et al., 2016; Carter et al., 2011; Green et al., 2013; Rocha et al., 2007; Rogers et al., 2012a; Schertz & Odom, 2007; Steiner et al., 2013), les parents ont expliqué leur satisfaction envers l'intervention reçue notamment par les stratégies qu'ils ont généralement jugées utiles. Comme souligné dans les études antérieures, la forte satisfaction rapportée face au programme permet sans doute d'optimiser l'implication des parents dans l'intervention (Bradshaw et al., 2017; Ogilvie & McCrudden, 2017). Deuxièmement, les données quantitatives et qualitatives soulignent également une forte acceptabilité de l'intervention en lien avec l'implantation des stratégies par les familles. Tel que rapporté dans les études antérieures, un haut niveau d'implantation des stratégies a été observé dans les périodes de jeu filmées et évaluées quantitativement (Brian et al., 2016; Rocha et al., 2007; Rogers et al., 2012a; Steiner et al., 2013; Vismara et al., 2009). Malheureusement, l'équipe de recherche n'a pas été en mesure de collecter de l'information valide concernant l'utilisation réelle des stratégies dans la vie quotidienne de la famille (ex. : temps d'utilisation des stratégies, moment d'utilisation). Cette limite au niveau de l'implantation réelle des stratégies en l'absence du thérapeute, précédemment rapporté dans la littérature, limite ainsi la compréhension approfondie des liens entre l'utilisation des stratégies et les autres variables (Rogers et al., 2012a). Bien qu'il fût demandé aux parents de compléter un journal de bord concernant l'utilisation des stratégies en l'absence du thérapeute, les familles ne complétèrent pas assidument le journal de bord, trouvant que la complétion de cet outil était irréaliste et prenait plus de temps et d'énergie que l'utilisation des stratégies en soi. Néanmoins, les parents ont spontanément rapporté lors des entrevues une facilité d'utilisation des stratégies dans leur quotidien. De fait, ils ont souligné que les stratégies peuvent être facilement utilisées par le parent, et même la fratrie, lors des interactions avec l'enfant suspecté d'avoir un TSA. Et que lorsque ceux-ci mettent en application les stratégies, l'enfant est alors stimulé dans les interventions naturelles, donc sans que cela ne soit lourd pour le jeune enfant. Les parents transférèrent même leurs nouveaux apprentissages acquis lors des séances d'intervention à différents membres de leur entourage (c.-à-d. : conjoint, enfants, mère et amie). Ce transfert de connaissances ayant pour

but d'optimiser la stimulation adéquate de leur enfant auprès de différents acteurs impliqués auprès de l'enfant reflète ainsi une généralisation des stratégies apprises par les parents.

5.2.5 Améliorations suggérées

Tel qu'illustré en pointillé mauve dans la représentation graphique du modèle logique (voir la figure 4), certaines composantes du modèle logique du programme d'accompagnement parental ont été ajoutées afin de mieux représenter les résultats de cette thèse. Le changement le plus important ajouté dans la section « stratégies » est l'individualisation de l'intervention pour mieux répondre aux besoins uniques de chaque famille. De fait, il est reconnu qu'aucune intervention ne conviendra à tous les enfants avec un TSA et leur famille (Hume & Odom, 2011; Rogers & Wallace, 2011). Ainsi, l'individualisation de l'intervention aux contextes et besoins spécifiques de chaque famille devrait être un élément central de tout modèle d'accompagnement parental afin de répondre aux besoins hétérogènes des familles (Keen et al., 2010), se reflétant ainsi par une forte satisfaction des parents. Pour ce faire, les différentes thématiques pourraient être présentées aux familles initialement. En fonction des priorités des parents, le thérapeute pourrait, par exemple, ordonner différemment les séances, passer plus ou moins de temps sur certaines stratégies ou encore ajouter une ou deux modalités non incluses dans le modèle qui répond aux besoins spécifiques des parents (ex. : alimentation, sommeil, habillage, apprentissage de la propreté, etc.).

De façon intéressante, les entrevues auprès des parents ont permis de mettre en évidence certaines modalités d'intervention qui permettrait de répondre aux besoins particuliers des familles. Parmi les suggestions des parents, les propositions d'amélioration de l'intervention ont été séparées en deux groupes, soit 1) les modalités favorisant le développement de l'enfant et 2) les modalités renforçant le bien-être parental.

Premièrement, l'effet de l'intervention sur le développement de l'enfant, illustré par le lien entre les modalités d'intervention et les variables du développement de l'enfant, pourrait être accentué en intégrant plus d'intervention directe auprès de l'enfant selon les propos des parents. Ceux-ci suggèrent ainsi d'ajouter du temps où l'intervenant agit directement avec l'enfant lors des séances d'intervention à domicile et d'intégrer au programme d'intervention

des séances de stimulation et d'intervention de groupes auprès de quelques enfants ayant des difficultés similaires (Beaudoin et al., soumis b).

Deuxièmement, les parents ont suggéré des améliorations au niveau des modalités d'intervention utilisées dans le programme d'accompagnement parental afin de mieux répondre aux besoins spécifiques des parents. Ainsi, en plus de favoriser un partenariat entre le thérapeute et le parent pour réduire le stress perçu par les parents et augmenter leur sentiment de compétence comme discuté précédemment (voir section 6.1.2 *Bien-être parental*), les parents ont mis en lumière trois autres modalités qui leur permettraient d'avoir un plus grand soutien psychosocial. Telles que décrites dans l'article 4, ces modalités proposées par les parents incluent des groupes de soutien pour échanger entre parents, l'implication des deux partenaires dans l'intervention pour réduire le fardeau sur l'aidant principal et être informé sur les autres ressources disponibles pour la famille (ex. : organismes communautaires).

Ainsi, bien que les éléments représentés en mauve n'aient pas été inclus dans le programme évalué dans cette thèse, les futurs programmes d'accompagnement parental gagneraient à se baser sur les suggestions des parents pour bonifier leur offre de services. De fait, en intégrant les éléments représentés en mauve, les futurs programmes pourront répondre plus spécifiquement aux besoins et attentes des familles ayant un jeune enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA, notamment en considérant le soutien familial comme un élément essentiel au bien-être parental en cette période de grand stress qui entoure l'évaluation diagnostique.

5.3 Forces, limites et retombées cliniques de l'intervention novatrice

La deuxième section de la discussion présentera de façon critique les forces et les limites de l'intervention évaluée dans le cadre du projet doctoral en plus de discuter des retombées potentielles de l'intervention au plan clinique, particulièrement au Québec. Pour ce faire, les forces, les limites et les retombées cliniques seront abordées pour chacun des quatre thèmes suivants : 1) l'adaptation du programme d'accompagnement parental, 2) l'adéquation avec

les besoins du réseau de santé et de services sociaux, 3) l'expérience des parents et 4) la diversité socioculturelle et socioéconomique.

5.3.1 Adaptation du programme d'accompagnement parental

Ce projet de recherche a évalué une intervention novatrice basée sur deux approches d'intervention reconnues auprès d'une clientèle ayant un TSA. De fait, en intégrant des éléments du modèle SCERTS (Prizant et al., 2006) au programme d'accompagnement parental du ESDM (Rogers et al., 2012b), l'équipe de recherche a développé une intervention novatrice basée sur les données probantes et les meilleures pratiques en matière d'intervention précoce auprès de jeunes enfants avec un TSA (Prizant et al., 2010; Rogers & Wallace, 2011). À titre indicatif, l'intervention évaluée dans la présente thèse répond aux cinq éléments clés qui sont liés aux meilleurs résultats (*National Research Council (U.S.) & Committee on Educational Interventions for Children with Autism*, 2001; Rogers et Wallace, 2011) soit :

- 1) Débuter l'intervention le plus tôt possible
 - ✓ Intervention évaluée dans la thèse : début entre 12 et 30 mois, avant même le diagnostic officiel de TSA
- 2) Offrir une intervention au moins 25 heures par semaine
 - ✓ Intervention évaluée dans la thèse : stimulation par les parents dans les interactions quotidiennes, mais qui n'a pu être quantifiée en termes d'heures d'implantation
- 3) Utiliser des stratégies basées sur l'approche comportementale
 - ✓ Intervention évaluée dans la thèse : intégration de stratégies comportementales et sociopragmatique développementale
- 4) Mettre l'accent sur le développement du langage, des habiletés sociales, du jeu, de l'imitation et de l'attention conjointe
 - ✓ Intervention évaluée dans la thèse : stratégies ciblant les habiletés sociocommunicatives (ex. : langage, habiletés sociales et attention conjointe), cognitives (ex. : jeu et imitation) et de régulation émotionnelle

5) Impliquer la famille

- ✓ Intervention évaluée dans la thèse : implication importante de la famille via l'accompagnement parental

Malgré tout, certaines limites quant à l'intervention évaluée ont été mises en lumière par l'analyse des propos collectés via les entrevues auprès des parents et la comparaison aux données de la littérature. Parmi les limites, il est important de souligner les effets légers à modérés observés sur les différentes variables à la suite de la participation des familles à l'intervention (Beaudoin et al., soumis a; soumis b). De plus, les limites de l'intervention proprement dite incluent une individualisation limitée de l'intervention ainsi qu'une intervention fortement dirigée par le thérapeute. Tel que souligné dans les écrits, le degré de contrôle offert aux parents varie grandement dans les programmes d'accompagnement parental (Kessler & Graham, 2015). L'intervention évaluée pour ce projet étant basée sur un manuel d'intervention structurant les séances d'intervention, le coaching offert aux familles était plus directif (Kessler & Graham, 2015), limitant de fait l'individualisation de l'intervention aux besoins spécifiques de chaque famille (Keen et al., 2010). Tel que discuté précédemment, il est probable que la position d'expert dirigeant l'intervention prise par le thérapeute ait limité les effets bénéfiques de l'accompagnement parental sur le stress perçu par les parents et leur sentiment d'auto-efficacité (Brookman-Frazee & Koegel, 2004).

Néanmoins, différentes stratégies pourraient être mises en place lors de l'utilisation d'une approche d'accompagnement parental auprès de parents ayant un jeune enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA afin de réduire les limites rapportées ci-dessus. Premièrement, tel que proposé par l'INESSS, les cliniciens utilisant une approche d'accompagnement parental gagneraient à individualiser le contenu discuté avec les parents « puisque, en principe, la formation devrait porter sur les besoins des parents » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014). Il demeure un défi au niveau de la recherche afin de trouver un équilibre entre l'individualisation des services suggérés par les parents et la littérature et la structure de l'intervention qui permet d'évaluer les effets d'un programme défini (Craig et al., 2008; Smith et al., 2007). Pour ce faire, il serait notamment possible de mettre à la disposition des thérapeutes une banque de stratégies dans laquelle ils

choisiraient les sujets à aborder avec les différentes familles en fonction de leurs besoins et connaissances préalables, plutôt que de se restreindre à utiliser exclusivement un seul modèle d'intervention (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014).

Deuxièmement, l'utilisation future de stratégies d'accompagnement parental auprès des parents d'enfants ayant une suspicion de TSA devrait mettre l'accent sur l'aspect collaboratif de l'intervention afin d'optimiser les effets bénéfiques sur le bien-être parental (Brookman-Frazee & Koegel, 2004). À titre indicatif, l'*Occupational Performance Coaching* (Graham & Rodger, 2010) est un modèle qui se veut davantage dirigé par le parent (Kessler & Graham, 2015). En adoptant un rôle de soutien aux parents qui dirigent l'intervention, le thérapeute facilite ainsi à la fois l'individualisation de l'intervention et la mise en place d'un partenariat avec la famille. Par contre, un défi supplémentaire se pose lors de l'évaluation d'une telle approche fortement individualisée. Ainsi, les effets de l'intervention doivent alors être évalués en fonction des objectifs spécifiques de chaque famille (Ruble et al., 2012), ce qui limite la comparaison inter-cas. L'utilisation d'outils tel le *Goal Attainment Scaling* (Kiresuk & Sherman, 1968) et la Mesure Canadienne de Rendement Occupationnel (Law et al., 2005) permettent néanmoins de mesurer l'efficacité de l'intervention en fonction d'objectifs individualisés (Graham et al., 2013). L'utilisation de tels outils est une alternative intéressante afin de guider l'évaluation avant et après l'intervention sur les objectifs réels de l'intervention en fonction des préoccupations et priorités des parents (Cusick et al., 2006), plutôt que de faire passer une batterie d'évaluation standardisée qui ne ciblera peut-être pas les objectifs d'intervention identifiés par le parent.

Finalement, afin d'optimiser l'effet de l'intervention sur l'ensemble des variables évaluées dans cette thèse (c.-à-d. : interaction parent-enfant, développement de l'enfant, bien-être parental et validité sociale), des sessions supplémentaires de rappel gagneraient à être intégrées après la fin de l'intervention. En utilisant, par exemple quelques séances supplémentaires espacées de quelques semaines comme l'ont fait Oosterling et collaborateurs (2010), les effets pourraient ainsi être maintenus au-delà du temps d'intervention de trois mois. Il serait également possible d'ajuster le nombre de sessions de rappel en fonction des besoins des familles (Green et al., 2015) afin d'optimiser l'utilisation

des ressources. Green et collaborateurs (2017) proposent de continuer d'intégrer des sessions de rappel jusqu'à deux ans après la fin de l'intervention afin de maintenir les compétences parentales.

5.3.2 Adéquation avec les besoins du réseau de la santé et des services sociaux

D'un point de vue de l'organisation des services offerts aux familles ayant un enfant avec un TSA, le programme d'accompagnement parental étudié permet de répondre aux besoins du système de la santé et des services sociaux du Québec. Sachant que le temps autour du diagnostic initial de TSA «est souvent émotionnellement douloureux (traduction libre)» (Estes et al., 2011) et que l'accès difficile aux services précoces ajoute au fardeau familial (Estes et al., 2011; Ministère de la santé et des services sociaux, 2003; St-Germain, 2009), il est essentiel d'offrir «des services en fonction des besoins avant le diagnostic» (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). En offrant un service rapide d'accompagnement parental, l'intervention proposée dans cette thèse permettrait de répondre aux besoins en termes d'accès aux services et de soutien à la famille qualifié de déficient par le protecteur du citoyen du Québec (St-Germain, 2009).

De plus, l'implantation d'un tel programme d'accompagnement parental est facilitée par la faible intensité de l'intervention et l'utilisation possible par une variété de professionnels, d'autant plus considérant le contexte actuel de bonification des services offerts à la clientèle TSA au Québec (Ministère de la santé et des services sociaux, 2017). En effet, en optant pour des interventions d'accompagnement parental tel que celui proposé dans cette thèse, le temps investi par les thérapeutes est multiplié par les parents, offrant ainsi une stimulation de forte intensité via les interactions quotidiennes entre le parent mieux outillé et son enfant, mais nécessitant peu de ressources humaines et financières. Dans le contexte de besoins grandissants (Centers for Disease Control and Prevention, 2016), l'utilisation des thérapeutes comme agent multiplicateur pour stimuler le développement des enfants est donc une alternative intéressante (Beaudoin & Couture, 2015). Il est également important de souligner que le programme d'accompagnement parental n'est pas spécifique à une profession. Ainsi, l'utilisation possible par une variété d'intervenants facilite son implantation dans les

différents contextes offrant des services sociaux aux enfants ayant une suspicion ou un diagnostic de TSA, peu importe la composition de l'équipe de soins.

Malgré les bénéfices énumérés ci-haut, avant d'implanter le programme d'accompagnement parental développé dans cette thèse ou une adaptation de cette intervention, il est nécessaire d'en connaître l'efficacité et l'efficience en milieu réel. Ainsi, l'implantation à grande échelle de ce programme d'intervention est un processus à long terme. Le présent projet permet de jeter les premières pierres sur lesquelles les cliniciens, gestionnaires, politiciens et chercheurs devront continuer à travailler. Par exemple, une évaluation en milieu réel sera nécessaire pour documenter les effets et coûts de l'intervention.

Néanmoins, cette thèse souligne l'importance et le réalisme de mettre en place des interventions précoces durant la période d'attente pour un diagnostic initial ou lorsque les familles attendent les services spécialisés. De fait, les résultats de la recherche soulignent les besoins importants de la famille qui ont été répondus par un service de faible intensité. Dans cette optique, la thèse met l'accent sur une utilisation de l'accompagnement parental dans des moments clés pour les familles et non pas comme «une intervention remplaçant les traitements plus intensifs offerts par des professionnels formés (traduction libre)» (Stahmer & Pellecchia, 2015).

Cela étant dit, il est espéré que les résultats de cette thèse permettront d'enrichir les discussions sur les mandats des différents programmes des CISSS. De fait, il est important d'établir les balises d'utilisation future possible d'un tel programme. À quelle équipe pourrait donc bénéficier l'utilisation d'un tel programme d'accompagnement parental pour répondre à leurs mandats? À la lumière des mandats des différents établissements, le programme d'accompagnement parental évalué dans cette thèse semblerait une alternative particulièrement intéressante pour les institutions de première ligne. De fait, dans sa forme actuelle, le programme d'accompagnement parental permettrait de bonifier leur offre de services au niveau de la stimulation globale précoce, de l'évaluation des besoins des familles, des services psychosociaux destinés aux familles et de l'assistance aux rôles parentaux (Ministère de la santé et des services sociaux, 2003). De fait, le protecteur du citoyen fait

notamment rapport que les programmes de première ligne « ne joue[nt] pas clairement le rôle de 1^{re} ligne » (St-Germain, 2009), soit d'offrir de la stimulation précoce. De fait, en référant directement les enfants avec un TSA vers les CRDITED, « des lacunes dans l'intervalle durant lequel [les familles] attendent pour obtenir des services de 2^e ligne » (St-Germain, 2009) sont observées. Dans la mouvance de développer « des services psychosociaux aux familles [...] et des programmes de stimulation précoce pour les enfants non encore diagnostiqués » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014), l'utilisation du programme d'accompagnement parental ou d'une version bonifiée est une avenue à explorer.

5.3.3 Expérience des parents

En voulant explorer la perspective des parents encore peu examinée dans les projets de recherche, le présent projet a mis en lumière des besoins peu documentés et peu répondus qu'ont ces parents autour de la période du diagnostic. En considérant les parents comme des acteurs clés des programmes d'accompagnement parentaux, une sensibilisation doit être faite auprès des différents intervenants œuvrant auprès des familles ayant un enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA concernant leurs besoins spécifiques. Dans cette optique, nous souhaitons que le présent projet contribue à sensibiliser les différents acteurs sur les besoins des parents et des modalités proposés par ceux-ci pour y répondre.

En examinant les effets du programme d'accompagnement parental sur les variables parentales et de l'enfant, tel que proposé par Stahmer et Pellechia (2015), un équilibre difficile à trouver entre le développement de leur enfant et le bien-être du parent a été mis en lumière (Beaudoin et al., soumis b). Sachant que les parents reçoivent peu de services pour prendre soin d'eux, des efforts doivent être déployés afin d'offrir un soutien adéquat aux parents d'enfants présentant un TSA. De fait, « lorsque les parents sont formés à donner l'intervention à leur enfant, il est nécessaire que ces parents reçoivent un soutien suffisant de la part des professionnels, sans quoi les résultats seront moins positifs qu'anticipés pour l'enfant (traduction libre) » (Tarbox et al., 2014). Quelques pistes de modalités qui pourraient être intégrées afin de bonifier le soutien offert aux parents incluent du répit et du réseautage entre parents (Estes et al., 2011). Tel que proposé par les parents et supporté par la littérature,

l'intégration de séances de groupe pour les parents serait également à considérer pour l'implantation future d'un tel programme d'accompagnement parental en milieu clinique. La « combinaison d'interventions individualisées à domicile (coaching) et de rencontres en groupes homogènes suivant l'âge et le profil de l'enfant » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014) permettrait ainsi de répondre à la fois aux besoins uniques des familles et d'offrir du soutien aux parents. En d'autres termes, si l'on se réfère à la taxonomie de Bearss illustrée à la figure 1 (voir section 1.3 *Accompagnement des parents ayant des jeunes enfants avec un diagnostic ou une suspicion de TSA*), il serait intéressant d'offrir à la fois un programme de soutien parental ainsi qu'un programme médié par les parents. Considérant l'importance des deux pôles de besoins rapportés par les parents (support psychosocial et développement d'habiletés) (Beaudoin et al., soumis b), il serait sans doute idéal que ces deux programmes se déroulent simultanément. À titre d'exemple, au Québec, un programme médié par les parents intitulé *Au-delà du TED : des compétences parentales à ma portée*, est un exemple de programme majoritairement médié par les parents qui offrent également aux parents ayant un enfant avec un TSA des actions psychoéducatives afin d'agir sur les émotions et les cognitions des parents (Stipanivic et al., 2014). En fonction des besoins rapportés par les parents dans le présent projet de recherche, il pourrait être intéressant de s'inspirer du programme *Au-delà du TED : des compétences parentales à ma portée* pour adapter le programme d'accompagnement parental aux parents ayant un jeune enfant avec une suspicion de TSA, mais pas encore de diagnostic. Considérant que ces familles ont actuellement peu accès aux services avant le diagnostic de leur enfant, il est d'autant plus important de prendre le temps de soutenir les parents dans leur adaptation.

5.3.4 Diversité socioculturelle et socioéconomique

Contrairement à ce qui est rapporté dans les écrits scientifiques portant sur les programmes d'accompagnement parental pour des jeunes enfants avec un TSA, les familles recrutées dans le cadre du présent projet présentaient une grande variété socioculturelle et socioéconomique. En ce sens, l'échantillonnage du projet doctoral répond au « défi très important [qu'] implique le recrutement de groupes de familles représentatives (traduction libre) » (Rogers et al., 2012a) de la diversité socioculturelle et socioéconomique.

Bien que le programme d'accompagnement parental évalué dans cette thèse a été fortement apprécié (Beaudoin et al., soumis b), la participation de familles avec une variété d'ethnicité, de langue maternelle, de niveau de scolarité et de revenu familial a mis en évidence l'importance d'offrir une intervention individualisée aux familles afin de répondre à leurs besoins qui varient en fonction, notamment de leurs contextes socioculturels et socioéconomiques. Considérant l'importance accordée aux interactions parent-enfant dans la mise en place du programme d'accompagnement parental, le thérapeute doit être spécialement sensible aux particularités socioculturelles des familles (Rogers & Wallace, 2011). En d'autres mots, il est recommandé que le thérapeute adopte explicitement une approche culturellement sensible afin d'offrir un accompagnement individualisé aux différentes familles (Balcazar et al., 2009). Afin d'offrir une intervention de qualité dans un tel contexte culturellement diversifié, le thérapeute doit alors développer sa compétence culturelle (Campinha-Bacote, 1999) en adaptant son intervention « aux croyances, valeurs et pratiques culturelles du patient (traduction libre) » (Narayan, 2002). De fait, bien que certains éléments centraux de l'intervention sont possiblement utiles et efficaces avec des familles provenant de contextes variés, « les façons d'offrir les interventions, de partager l'information et l'implication des familles peuvent être différentes pour les enfants et familles provenant de groupes raciaux, ethniques et linguistiques différents (traduction libre) » (Hume & Odom, 2011). Dans ce sens, le programme évalué gagnerait à mettre explicitement de l'avant une approche culturellement sensible, plutôt que de se fier aux compétences individuelles des intervenants tels que ce fût le cas lors de l'expérimentation dans mon projet doctoral. De plus, la mise en place d'un programme d'accompagnement parental qui permet à la fois de moduler les modalités d'intervention et les stratégies abordées avec les parents en fonction des contextes des familles permettrait sans doute d'optimiser à la fois l'implication des familles, l'effet de l'intervention et sa validité sociale (Narayan, 2002).

5.4 Forces, limites et retombées scientifiques du projet de recherche

Ce projet s'inscrit dans un intérêt grandissant de la communauté scientifique envers les programmes d'accompagnement parental pour offrir une intervention rapide de faible intensité aux familles ayant un très jeune enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA (Bearss et al., 2015a; Beaudoin et al., 2014). Au Canada, un engouement est également

observé auprès de plusieurs groupes de recherche qui souhaitent évaluer les effets d'un programme d'accompagnement parental chez cette clientèle. Néanmoins, ce projet novateur est seulement la deuxième étude canadienne (Brian et al., 2016), et la première à se dérouler, du moins en partie, dans un milieu francophone. De plus, le projet doctoral présente des éléments caractéristiques qui le distinguent des études préalables, notamment l'utilisation d'un devis de recherche mixte, un cadre de recherche basé sur le processus d'évaluation de programmes et l'évaluation d'une intervention près de la réalité clinique. Ces trois thèmes seront explicités dans les prochaines pages, en y détaillant les forces, les limites et les retombées sur les futures recherches de ces trois caractéristiques.

5.4.1 Devis mixte de recherche

Rappelant que l'objectif général de l'étude était d'évaluer un programme d'accompagnement parental de 12 semaines pour des enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA en considérant les deux acteurs-clés, soit l'enfant avec une suspicion de TSA et son parent qui agit à titre d'agent de changement », il était important d'utiliser un devis de recherche permettant la triangulation des résultats de recherche afin de comprendre l'expérience des familles ayant participé au programme d'accompagnement parental sous toutes ses facettes (Briand & Larivière, 2014). L'utilisation d'un devis mixte séquentiel explicatif a ainsi permis de répondre à l'objectif de recherche en triangulation les résultats des différentes sources de données en assurant la validité des conclusions (Briand & Larivière, 2014). De plus, il est intéressant de souligner que la méthodologie de recherche mixte utilisée dans le projet doctoral permet de répondre à des lacunes dans la littérature qui ont été mis en lumière en 2017 lors de l'évaluation de la validité sociale du modèle ESDM offert en intervention directe par un thérapeute (Ogilvie & McCrudden, 2017). De fait, Ogilvie et McCrudden (2017) proposent (traduction libre) :

d'utiliser un devis séquentiel explicative dans lequel un traitement implanté dans une première phase quantitative [...]. Ensuite, dans une phase qualitative subséquente, le chercheur peut échantillonner les parents qui ont noté haut ou bas la validité sociale de l'intervention et comparer les thèmes (traduction libre) (Ogilvie & McCrudden, 2017).

Dans un premier temps, le devis mixte incluait un essai randomisé croisé exploratoire afin de collecter de façon rigoureuse les données quantitatives en lien avec les effets de

l'intervention sur les interactions parent-enfant, le bien-être parental et le développement de l'enfant (Fortin & Gagnon, 2015). Dans l'optique d'assurer la validité des données, il est important de souligner à nouveau l'évaluation indépendante de la variable principale (c.-à-d. : qualité des interactions parent-enfant) qui a été réalisée par deux évaluateurs. De plus ces évaluateurs étaient à l'insu du groupe de randomisation et du temps d'évaluation (Beaudoin et al., soumis a) afin de limiter les risques de biais.

Un total de 19 dyades parent-enfant ont participé à cette section quantitative de la recherche. Bien que la taille d'échantillon prévue initialement était de 42 dyades parent-enfant en se basant sur les données disponibles dans la littérature sur l'engagement dyadique entre les parents et leurs jeunes enfants avec un TSA (Adamson et al., 2012), la taille d'échantillon a été réévaluée en cours d'expérimentation. Grâce aux données préliminaires disponibles, l'équipe de recherche a pu ajuster le nombre de participants à recruter (voir section 4.6.1 *Taille d'échantillon pour l'essai randomisé croisé*). L'utilisation de données réelles pour estimer la taille d'échantillon a ainsi permis à l'équipe de recherche de recruter un nombre plus raisonnable de participants tout en s'assurant une puissance statistique suffisante pour détecter des changements durant l'intervention. De fait, un calcul *a posteriori* à l'aide du logiciel G*Power a démontré que le changement réel observé de 6.73 points sur la variable principale (c.-à-d. : qualité de l'engagement dyadique entre le parent et son enfant) était à la fois supérieur au plus petit changement détectable (2.47 points). Ainsi, la taille d'échantillon de 19 participants était adéquate pour détecter des changements intra-groupe dans les variables évaluées post-intervention. Par contre, la taille d'échantillon a limité la puissance statistique pour les analyses inter-groupe, se manifestant par une quasi-absence de différence significative entre le groupe Intervention et le groupe Liste d'attente.

De plus, le haut taux d'attrition à l'évaluation de suivi a grandement limité la puissance pour les analyses au suivi. Ainsi, malgré l'utilisation d'une mesure de suivi trois mois après la fin de l'intervention pour répondre aux limites de la littérature disponible qui se restreignait principalement à la mesure de l'effet des programmes d'accompagnement parental directement après la fin de l'intervention (Beaudoin et al., 2014). La forte attrition à l'évaluation de suivi a limité la possibilité de détecter des changements trois mois après la

fin de l'intervention. En d'autres termes, cette taille d'échantillon très limitée au suivi n'a donc pas permis de conclure sur le maintien (ou non) des améliorations notées lors de la période d'intervention. Considérant cette limite méthodologique importante, il est essentiel que les futures recherches prévoient un haut taux d'attrition à l'évaluation de suivi. Les futures recherches pourraient également mettre en place des processus pour limiter la perte au suivi et ainsi bonifier la littérature sur ce moment peu étudié que sont les mois suivants l'intervention. Par exemple, l'équipe de recherche pourrait fournir un rapport d'évolution concernant le développement de l'enfant à la fin de la période de suivi plutôt que directement après la fin de l'intervention afin d'inciter les familles à compléter l'évaluation de suivi. Également, l'équipe de recherche pourrait garder contact avec les familles à quelques occasions (ex. : sessions de rappel) pendant la période de suivi pour maintenir le lien thérapeutique et l'implication de la famille dans le projet de recherche.

De plus, il est important de souligner que la taille d'échantillon de 19 participants à ce projet de recherche a néanmoins limité les analyses statistiques possibles. Par exemple, il a été impossible d'inclure des covariables pour contrôler l'effet de certaines variables potentiellement confondantes ou de réaliser des analyses de régression qui auraient permis d'expliquer la variance de l'effet de l'intervention à l'aide d'une combinaison de facteurs explicatifs et donc d'obtenir une modélisation plus précise des changements découlant de l'intervention. Les futures études gagneraient ainsi à utiliser des modèles statistiques permettant d'évaluer les prédicteurs et médiateurs des programmes d'accompagnement parental, et ainsi, bonifier la compréhension du mécanisme de changement ainsi que des ingrédients actifs de tels interventions. De récents travaux soulignent notamment que les améliorations chez les enfants notées après leur participation à un programme d'accompagnement parental pourraient être médiées par les comportements parentaux (Gulsrud et al., 2016; Watson et al., 2017). À la lumière de ces résultats préliminaires, la recommandation d'évaluer les effets interdépendants des programmes d'accompagnement parental afin de « comprendre comment les changements sur le parent et le fonctionnement de l'enfant pendant et après le traitement s'influencent mutuellement (traduction libre) » (Karst & Van Hecke, 2012) semble toujours être une priorité à aborder dans les futures recherches.

Dans un deuxième temps, l'intégration de la section qualitative a permis d'enrichir les informations et approfondir l'interprétation des résultats de l'étude (Briand & Larivière, 2014). De fait, l'exploration de la perspective parentale via les entrevues a permis de détailler et nuancer les effets de l'intervention sur le bien-être parental (Beaudoin et al., soumis b). Néanmoins, un défi considérable rencontré dans cette partie a été de limiter l'effet de désirabilité sociale pour les parents. Ainsi, malgré les précautions prises telles l'utilisation d'un interviewer externe au projet de recherche, la mise en place d'un climat d'échange et de non-jugement lors de l'entrevue, des explications sur l'importance d'offrir des rétroactions constructives afin de bonifier le programme en fonction de leurs besoins, il est fort possible que les résultats aient été influencés par un désir, conscient ou non, des parents de souligner davantage les éléments positifs de l'intervention.

Dans un troisième temps, l'intégration des données quantitatives et qualitatives s'est basée sur les meilleures pratiques en recherche utilisant un devis mixte afin d'assurer la rigueur des résultats présentés. Ainsi, l'équipe de recherche a effectué l'échantillonnage du sous-échantillon complétant l'entrevue à même l'échantillon de participants ayant complété l'intervention afin d'augmenter la rigueur scientifique (Creswell et al., 2011). De plus, le processus scientifique présenté dans cette thèse s'est basé sur le modèle logique de l'intervention afin de relier les différentes expérimentations pour répondre à l'objectif de recherche (Creswell et al., 2011). Finalement, tel que souligné à la section *6.1 Validité du modèle logique du programme d'accompagnement parental*, dans le cas de résultats contradictoires entre l'expérimentation quantitative et qualitative, la doctorante a exploré la littérature afin d'ouvrir l'interprétation et de proposer des nouvelles hypothèses (Creswell et al., 2011). Malgré ce désir d'intégration des résultats quantitatifs et qualitatifs en un tout cohérent (Creswell, 2013), un défi en lien avec la synthèse de l'ensemble des résultats dans une optique de publication a été vécu (Briand & Larivière, 2014). Ainsi, le troisième article s'est concentré sur des données purement quantitatives (Beaudoin et al., soumis a), alors que le quatrième a intégré des données qualitatives et quantitatives en réduisant les variables présentées.

5.4.2 Évaluation de programmes

Il est également important de souligner le cadre d'évaluation de programme qui a été mis en place afin de guider la méthodologie de recherche utilisée dans cette thèse. Plus précisément, en évaluant la théorie sous-jacente au programme proposé et en évaluant ses effets chez 19 dyades parent-enfant, une évaluation préliminaire en milieu universitaire du programme d'accompagnement parental pour des jeunes enfants à risque de TSA a donc permis de vérifier que l'intervention vaut la peine d'être implantée et évaluée à plus grande échelle (Ridde & Dagenais, 2012; Smith et al., 2007).

Parmi les étapes clés du processus d'évaluation de programme mises en place, notons notamment l'analyse des besoins et la conception du modèle logique initial qui ont permis de développer une intervention répondant aux besoins de la clientèle en plus de supporter la complémentarité des services offerts et d'assurer l'adéquation entre la logique de conception et la logique d'évaluation (Paquette & Chagnon, 2000). Toutefois, considérant qu'aucune donnée provenant de l'expérience pratique n'était disponible au moment de la planification de l'intervention, l'analyse des besoins et le développement du modèle logique se sont alors basés uniquement sur les données disponibles dans les écrits scientifiques et gouvernementaux (McLaughlin & Jordan, 2004; Rossi et al., 2003; Beaudoin et al., soumis3). Ce processus de planification de l'intervention en fonction des connaissances théoriques plutôt que pratiques peut d'ailleurs expliquer en partie les résultats limités au niveau de l'effet de l'intervention sur le bien-être parental puisque les besoins identifiés dans la littérature et les modalités incluses dans l'intervention pour y répondre ne concordaient pas totalement aux réelles priorités des parents. Afin de pallier à cette limite, la perspective des parents a été prise en considération pendant l'expérimentation. En se faisant, le présent projet a permis de bonifier la compréhension des besoins des parents d'enfants ayant une suspicion de TSA notamment en termes de soutien social et informationnel (Beaudoin et al., soumis b). Il est souhaité que les écarts relevés en analysant les entrevues des parents *a posteriori* entre les besoins des parents et ce qui était offert dans l'intervention serviront de tremplin pour améliorer les prochains projets de recherche sur l'accompagnement parental auprès de ces familles.

Considérant les résultats prometteurs de l'analyse des effets de l'intervention (Beaudoin et al., soumis a; soumis b), la prochaine étape serait alors d'évaluer l'implantation du programme d'accompagnement parental en milieu réel de pratique. En effet, le présent projet de recherche a permis d'améliorer l'état des connaissances à propos de l'efficacité de l'intervention ainsi que de proposer des pistes d'amélioration de l'intervention. Malgré la représentativité de l'échantillon ayant participé au programme implanté par l'équipe de recherche, il est souhaité que le programme amélioré soit évalué dans la communauté puisque l'identification d'une pratique novatrice n'assure en rien l'utilisation de cette pratique avec la clientèle (Hume & Odom, 2011). Ainsi, les futures recherches devraient se concentrer sur la documentation de l'adoption du programme d'accompagnement parental amélioré par les cliniciens et de la fidélité d'implantation de l'intervention en milieu réel (Hume & Odom, 2011). Pour ce faire, l'adoption d'une approche pragmatique permettrait d'évaluer les effets et l'implantation du programme en milieu réel (Feilzer, 2010). À titre d'exemple, des projets pilotes pourraient être démarrés dans certaines institutions du réseau de la santé et des services sociaux du Québec afin de documenter les effets et l'implantation du programme d'accompagnement parental auprès de « parents “tout-venant” et non avec des parents motivés comme cela peut être le cas en recherche » (Institut national d'excellence en santé et en services sociaux, 2014).

5.4.3 Intervention près de la réalité clinique

Finalement, les ressemblances importantes entre l'intervention évaluée et celle qui pourrait être implantée dans les établissements de santé et de services sociaux du Québec sont une force majeure de la présente étude. En plus d'inclure des participants provenant de milieux socioculturels et socioéconomiques diversifiés (voir section 6.2.4 *Diversité socioculturelle et socioéconomique*) qui représentent la population réellement desservie par les programmes de première ligne du Québec, l'intervention se déroulait en milieu réel (au domicile). Contrairement à plusieurs études antérieures où les séances d'accompagnement se déroulaient dans un local clinique en milieu universitaire (Estes et al., 2014; Gulsrud et al., 2010; Kasari et al., 2010; Rocha et al., 2007; Rogers et al., 2012c; Vismara et al., 2009; Wong & Kwan, 2010), la présente étude s'est déroulée au domicile des parents. Selon une méta-analyse, les interventions se déroulant à domicile ont plusieurs avantages dont une

«augmentation des opportunités d'apprentissage, une diminution des problèmes de généralisation des acquis et une amélioration du sentiment d'auto-efficacité des parents (traduction libre)» (Debodinance et al., 2017) puisqu'ils se déroulent dans l'environnement naturel de l'enfant. De plus, l'intervention à domicile représente le milieu où l'accompagnement parental pourrait se dérouler dans une future phase d'implantation d'une telle intervention dans les services publics.

Par contre, certaines caractéristiques de l'intervention évaluée limitent l'extrapolation possible des résultats au milieu réel. Parmi ces différences, mentionnons notamment que l'accompagnement parental était offert par des membres de l'équipe de recherche plutôt qu'avec les intervenants qui pourraient éventuellement utiliser une telle intervention dans leur pratique (ex. : éducateur spécialisé, psychoéducateur, orthophoniste, ergothérapeute, etc.). Dans l'optique d'une future implantation d'un tel programme d'accompagnement parental dans le réseau de la santé et des services sociaux, il sera essentiel d'assurer que les intervenants offrant le service aient la formation et l'expérience nécessaire pour offrir un service de haute qualité aux parents, tel que ce fût le cas dans le projet de recherche. De plus, afin de faciliter le recrutement et le maintien des familles dans le projet de recherche, les intervenants offraient beaucoup de disponibilités, incluant les jours de semaine, les soirs et les fins de semaine. Cette grande flexibilité dans l'horaire permettait ainsi d'accommoder les différentes familles afin de faciliter leur implication dans l'intervention, ce qui n'est pas toujours possible d'offrir dans un contexte de services de santé ou de services sociaux dans le secteur public.

CONCLUSION

En conclusion, le présent projet doctoral a mis en lumière un modèle logique détaillant les effets prometteurs du programme d'accompagnement parental visant à outiller les parents d'enfants de 12 à 30 mois avec une suspicion de TSA. De fait, des résultats positifs intra-groupe ont été rapportés particulièrement au niveau de l'effet de l'intervention sur la qualité de l'engagement dyadique entre le parent et son enfant en période de jeu non structuré, sur le développement des habiletés de l'enfant et en ce qui a trait à la validité sociale du programme. Néanmoins, il est essentiel de souligner que les améliorations notées pendant la période d'intervention n'étaient pas statistiquement supérieures à l'évolution normale observée dans le groupe en attente de services. Considérant des changements intra-groupe significatifs et l'absence de différence significative inter-groupe, il nous semble essentiel de poursuivre la recherche sur les effets du programme d'accompagnement parental en considérant à la fois les variables parentales et celles de l'enfant.

Malgré la puissance statistique limitée, les résultats prometteurs démontrent à la fois la faisabilité et l'utilité de mettre en place un tel programme avec des familles tôt dans le processus d'évaluation diagnostique. De fait, les familles ayant un très jeune enfant avec une suspicion ou un diagnostic de TSA ont souligné leur besoin important d'être outillé afin d'aider leur enfant, mais également pour alimenter leur espoir quant au futur de leur enfant. Il n'est sans dire que ces familles ont des besoins importants et qu'il est primordial de trouver des façons novatrices de répondre à leurs besoins malgré les réalités du milieu clinique.

Également, l'implication des familles dans le processus de recherche, notamment par les entrevues réalisées après leur participation à l'intervention, fut un élément essentiel qui a permis d'adapter le modèle logique à la réalité. De fait, il est encouragé que les futures recherches incluent les parents comme des membres de l'équipe de recherche afin d'avoir le point de vue des principaux intéressés tout au long du processus de recherche.

LISTE DES RÉFÉRENCES

- Abbeduto, L., Seltzer, M. M., Shattuck, P., Krauss, M. W., Orsmond, G., et Murphy, M. M. (2004). Psychological well-being and coping in mothers of youths with autism, down syndrome, or fragile X syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, *109*(3), 237-254.
- Abidin, R.R. (1990). Parenting stress index-short form (Charlottesville, VA: Pediatric Psychology Press).
- Absil, G., Vandoorne, C., et Demarteau, M. (2012). Bronfenbrenner, écologie du développement humain. Réflexion et action pour la promotion de la santé.
- Adamson, L.B., Bakeman, R., Deckner, D.F., et Nelson, P.B. (2012). Rating parent-child interactions: Joint engagement, communication dynamics, and shared topics in autism, down syndrome, and typical development. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *42*(12), 2622–2635.
- Adamson, L.B., Bakeman, R., Deckner, D.F., et Nelson, P.B. (2013). Items for rating the Communication Play Protocol: Engagement state, child and caregiver behavior, and shared topic.
- Adamson, L.B., Bakeman, R., Deckner, D.F., et Ronski, M. (2009). Joint engagement and the emergence of language in children with autism and down syndrome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *39*(1), 84–96.
- Adamson, L.B., McArthur, D., Markov, Y., Dunbar, B., et Bakeman, R. (2001). Autism and joint attention: Young children's responses to maternal bids. *Applied Developmental Psychology* *22*, 439–453.
- Aldred, C., Green, J., et Adams, C. (2004). A new social communication intervention for children with autism: pilot randomised controlled treatment study suggesting effectiveness: Randomised social communication treatment for autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, *45*(8), 1420–1430.
- Allard, M.-J., Bergeron, J.D., Baharnoori, M., Srivastava, L.K., Fortier, L.-C., Poyart, C., et Sébire, G. (2016). A sexually dichotomous, autistic-like phenotype is induced by Group B *Streptococcus* maternofetal immune activation. *Autism Research*, *10*(2), 233-245.
- American Psychiatric Association (2013). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 5* (Washington, DC).
- Andrews, E., Decker, J., et Boswell, B. (1998). From the Field-Stimulus prompting of children with autism. *Clinical Kinesiology* *52*, 12–17.

- Attkisson, C.C., et Zwick, R. (1982). The client satisfaction questionnaire Psychometric properties and correlations with service utilization and psychotherapy outcome. *Evaluation and Program Planning*, 5(3), 233-237.
- Baio, J. (2012). Prevalence of autism spectrum disorders: Autism and developmental disabilities monitoring network, 14 sites, United States, 2008. *Morbidity and Mortality Weekly Report. Surveillance Summaries* 61(3) (Atlanta, GA: Centers for Disease Control and Prevention).
- Baker-Ericzén, M.J., Brookman-Frazee, L., et Stahmer, A. (2005). Stress levels and adaptability in parents of toddlers with and without autism spectrum disorders. *Research and Practice for Persons with Severe Disabilities*, 30(4), 194-204.
- Baker, B.L., Blacher, J., et Olsson, M.B. (2005). Preschool children with and without developmental delay: behaviour problems, parents' optimism and well-being. *Journal of Intellectual Disability Research*, 49(8), 575-590.
- Baker, J.K., Messinger, D.S., Lyons, K.K., et Grantz, C.J. (2010). A pilot study of maternal sensitivity in the context of emergent autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders* 40(8), 988-999.
- Balcazar, F.E., Suarez-Balcazar, Y., et Taylor-Ritzler, T. (2009). Cultural competence: Development of a conceptual framework. *Disability and Rehabilitation*, 31(14), 1153-1160.
- Baranek, G. T. (1999). Autism During Infancy: A Retrospective Video Analysis of Sensory-Motor and Social Behaviors at 9-12 Months of Age. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 29(3), 213-224.
- Barbaro, J., et Dissanayake, C. (2012). Developmental Profiles of Infants and Toddlers with Autism Spectrum Disorders Identified Prospectively in a Community-Based Setting. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(9), 1939-1948.
- Barnett-Page, E., et Thomas, J. (2009). Methods for the synthesis of qualitative research: a critical review. *BMC Medical Research Methodology* 9(1).
- Bayley, N. (2006). *Bayley Scales of Infant and Toddler Development- Third Edition* (San Antonio, TX: Harcourt Assessment).
- Bearss, K., Burrell, T.L., Stewart, L., et Scahill, L. (2015a). Parent training in autism spectrum disorder: What's in a name? *Clinical Child and Family Psychology Review*, 18(2), 170-182.
- Bearss, K., Burrell, T.L., Stewart, L., et Scahill, L. (2015b). Erratum to: Parent training in autism spectrum disorder: what's in a name? *Clinical Child and Family Psychology Review* 18(2), 183-183.

Beaudoin, A.J., et Couture, M. (2015). Occupational therapists facilitate earlier access to intervention through coaching and collaboration with parents of young children with suspected autism spectrum disorder. *Occupational Therapy Now*, 17(5), 29–30.

Beaudoin, A.J., Gauthier-Boudreault, C., Sébire, G., et Couture, M. (soumis b). Impact on parental well-being of a parent-mediated intervention for toddlers suspected of autism spectrum disorder: A mixed methods study. *Autism Research and Treatment*.

Beaudoin, A.J., Mestari, Z., Sébire, G., et Couture, M. (soumis a). A parent-mediated intervention increasing parent-child engagement in play and impacting evolution of toddlers' development outcomes: A randomized crossover trial. *Research in Autism Spectrum Disorders*.

Beaudoin, A.J., Sébire, G., et Couture, M. (2014). Parent Training Interventions for Toddlers with Autism Spectrum Disorder. *Autism Research and Treatment*, 2014, 1–15.

Beaudoin, A.J., Sébire, G., et Couture, M. (soumis c). How do parent-mediated interventions that focus on parent-child interactions influence the development of toddlers with ASD? Critical interpretive synthesis of the literature and development of a logic model. *Autism Research and Treatment*.

Belsky, J., Bakermans-Kranenburg, M.J., et Van IJzendoorn, M.H. (2007). For better and for worse differential susceptibility to environmental influences. *Current Directions in Psychological Science*, 16(6), 300–304.

Belsky, J., et Fearon, R.M.P. (2002). Early attachment security, subsequent maternal sensitivity, and later child development: Does continuity in development depend upon continuity of caregiving? *Attachment & Human Development*, 4(3), 361–387.

Bigras, M., LaFreniere, P.J., et Abidin, R.R. (1996). Indice de stress parental: manuel francophone en complément à l'édition américaine (Multi-Health System).

Boksa, P. (2010). Effects of prenatal infection on brain development and behavior: a review of findings from animal models. *Brain, Behavior, and Immunity*, 24(6), 881–897.

Bradshaw, J., Koegel, L.K., et Koegel, R.L. (2017). Improving functional language and social motivation with a parent-mediated intervention for toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 47(8), 2443–2458.

Brian, J.A., Smith, I.M., Zwaigenbaum, L., Roberts, W., et Bryson, S.E. (2016). The Social ABCs caregiver-mediated intervention for toddlers with autism spectrum disorder: Feasibility, acceptability, and evidence of promise from a multisite study: Social ABCs in multisite study. *Autism Research*, 9(8), 899–912.

Briand, C., et Larivière, N. (2014). Méthodes de recherche mixtes: Illustration d'une analyse des effets cliniques et fonctionnels d'un hôpital de jour psychiatrique. Dans *Méthodes Qualitatives, Quantitatives et Mixtes dans la recherche en sciences humaines, sociales et de la santé*, (Québec, Qc: Presses de l'Université du Québec), pp. 625–648.

- Bronfenbrenner, U. (1994). Ecological models of human development. *Readings on the Development of Children*, 2, 37–43.
- Bronfenbrenner, U. (2005). *Making human beings human: Bioecological perspectives on human development* (Sage).
- Brookman-Frazee, L., et Koegel, R.L. (2004). Using parent/clinician partnerships in parent education programs for children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 6(4), 195–213.
- Brousselle, A., et Champagne, F. (2011). Program theory evaluation: Logic analysis. *Evaluation and Program Planning*, 34(1), 69–78.
- Bryson, S. E., Zwaigenbaum, L., Brian, J., Roberts, W., Szatmari, P., Rombough, V., et McDermott, C. (2007). A Prospective Case Series of High-risk Infants who Developed Autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(1), 12–24.
- Buescher, A.V.S., Cidav, Z., Knapp, M., et Mandell, D.S. (2014). Costs of Autism Spectrum Disorders in the United Kingdom and the United States. *JAMA Pediatrics*, 168(8), 721–728.
- Campbell, S., Cannon, B., Ellis, J.T., Lifter, K., Luiselli, J.K., Navalta, C.P., et Taras, M. (1998). The May Center for Early Childhood Education: Description of a continuum of services model for children with autism. *International Journal of Disability*, 45(2), 173–187.
- Campinha-Bacote, J. (1999). A model and instrument for addressing cultural competence in health care. *Journal of Nursing Education*, 38(5), 203–207.
- Carpenter, M., Nagell, K., Tomasello, M., Butterworth, G., and Moore, C. (1998). Social cognition, joint attention, and communicative competence from 9 to 15 months of age. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 63(4), 1–174.
- Carter, A.S., Messinger, D.S., Stone, W.L., Celimli, S., Nahmias, A.S., et Yoder, P. (2011). A randomized controlled trial of Hanen’s “More Than Words” in toddlers with early autism symptoms: Hanen’s “More Than Words” RCT. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 52(7), 741–752.
- Centers for Disease Control and Prevention (2016). Prevalence and characteristics of autism spectrum disorder among children aged 8 years — Autism and developmental disabilities monitoring network, 11 Sites, United States, 2012. *Morbidity and Mortality Weekly Report. Surveillance Summaries*, 65, 1–23.
- Collier, D., et Reid, G. (1987). A comparison of two models designed to teach autistic children a motor task. *Adapted Physical Activity Quarterly*, 4(3), 226–236.
- Cooksy, L.J., Gill, P., et Kelly, P.A. (2001). The program logic model as an integrative framework for a multimethod evaluation. *Evaluation and Program Planning*, 24(2), 119–128.

Cordisco, L. K., Strain, P. S., et Depew, N. (1988). Assessment for generalization of parenting skills in home settings. *Journal of the Association for Persons with Severe Handicaps*, 13(3), 202-210.

Craig, P., Dieppe, P., Macintyre, S., Michie, S., Nazareth, I., et Petticrew, M. (2008). Developing and evaluating complex interventions: the new Medical Research Council guidance. *International journal of nursing studies*, 50(5), 587-592.

Creswell, J.W. (2013). *Research design: Qualitative, quantitative, and mixed methods approaches* (Sage publications).

Creswell, J.W., Klassen, A.C., Plano Clark, V.L., et Smith, K.C. (2011). *Best practices for mixed methods research in the health sciences*. Bethesda (Maryland): National Institutes of Health, 2094–2103.

Crockenberg, S.B. (1981). Infant irritability, mother responsiveness, and social support influences on the security of infant-mother attachment. *Child Development*, 52, 857–865.

Crockett, J.L., Fleming, R.K., Doepke, K.J., et Stevens, J.S. (2007). Parent training: Acquisition and generalization of discrete trials teaching skills with parents of children with autism. *Research in Developmental Disabilities*, 28(1), 23–36.

Cusick, A., McIntyre, S., Novak, I., Lannin, N., et Lowe, K. (2006). A comparison of goal attainment scaling and the Canadian occupational performance measure for paediatric rehabilitation research. *Pediatric Rehabilitation*, 9(2), 149–157.

Dabrowska, A., et Pisula, E. (2010). Parenting stress and coping styles in mothers and fathers of pre-school children with autism and Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 54(3), 266-280.

Davis, N. O., et Carter, A. S. (2008). Parenting stress in mothers and fathers of toddlers with autism spectrum disorders: Associations with child characteristics. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38(7), 1278-1291.

Dawson, G. (2008). Early behavioral intervention, brain plasticity, et the prevention of autism spectrum disorder. *Development and Psychopathology*, 20(3), 775-803.

Dawson, G., Carver, L., Meltzoff, A. N., Panagiotides, H., McPartland, J., et Webb, S. J. (2002). Neural correlates of face and object recognition in young children with autism spectrum disorder, developmental delay, and typical development. *Child Development*, 73(3), 700-717.

Dawson, G., Jones, E.J.H., Merkle, K., Venema, K., Lowy, R., Faja, S., Kamara, D., Murias, M., Greenson, J., Winter, J., et al. (2012). Early behavioral intervention is associated with normalized brain activity in young children with autism. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 51(11), 1150–1159.

Dawson, G., Meltzoff, A.N., Osterling, J., Rinaldi, J., et Brown, E. (1998). Children with autism fail to orient to naturally occurring social stimuli. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28(6), 479–485.

Dawson, G., Rogers, S., Munson, J., Smith, M., Winter, J., Greenson, J., Donaldson, A., et Varley, J. (2010). Randomized, controlled trial of an intervention for toddlers with autism: The Early Start Denver Model. *Pediatrics*, 125(1), e17–e23.

Dawson, G., Webb, S. J., Wijsman, E., Schellenberg, G., Estes, A., Munson, J., et Faja, S. (2005). Neurocognitive and electrophysiological evidence of altered face processing in parents of children with autism: Implications for a model of abnormal development of social brain circuitry in autism. *Development and Psychopathology*, 17(3), 679–697.

de Bildt, A., Sytema, S., Zander, E., Bölte, S., Sturm, H., Yirmiya, N., Yaari, M., Charman, T., Salomone, E., LeCouteur, A., et al. (2015). Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) algorithms for toddlers and young preschoolers: Application in a non-US sample of 1,104 children. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(7), 2076–2091.

Debodinance, E., Maljaars, J., Noens, I., et Van den Noortgate, W. (2017). Interventions for toddlers with autism spectrum disorder: A meta-analysis of single-subject experimental studies. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 36, 79–92.

De Giacomo, A., et Fombonne, E. (1998). Parental recognition of developmental abnormalities in autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 7(3), 131–136.

Delprato, D.J. (2001). Comparisons of discrete-trial and and normalized behavioral language intervention for young children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31(3), 315–325.

Dietz, C., Swinkels, S., Daalen, E. van, Engeland, H. van, et Buitelaar, J.K. (2006). Screening for autistic spectrum disorder in children aged 14–15 months. ii: population screening with the Early Screening of Autistic Traits Questionnaire (ESAT). Design and General Findings. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36(6), 713–722.

Diggle, T., McConachie, H., et Randle, V. (2002). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorder. *The Cochrane Database of Systematic Reviews*, 2.

Dixon-Woods, M., Cavers, D., Agarwal, S., Annandale, E., Arthur, A., Harvey, J., Hsu, R., Katbamna, S., Olsen, R., Smith, L., et al. (2006). Conducting a critical interpretive synthesis of the literature on access to healthcare by vulnerable groups. *BMC Medical Research Methodology*, 6(1), 35.

Donenberg, G., et Baker, B.L. (1992). The impact of young children with externalizing behaviors on their families. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 21(2), 179–198.

Drew, A., Baird, G., Baron-Cohen, S., Cox, A., Slonims, V., Wheelwright, S., Swettenham, J., Berry, B., et Charman, T. (2002). A pilot randomised control trial of a parent training

intervention for pre-school children with autism. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 11(6), 266–272.

Dugan, K.T. (2006). Facilitating independent behaviors in children with autism employing picture activity schedules (Teaneck: Fairleigh Dickinson University).

Dumas, J. E., Wolf, L. C., Fisman, S. N., et Culligan, A. (1991). Parenting stress, child behavior problems, and dysphoria in parents of children with autism, Down syndrome, behavior disorders, and normal development. *Exceptionality: A Special Education Journal*, 2(2), 97-110.

Eldevik, S., Hastings, R.P., Hughes, J.C., Jahr, E., Eikeseth, S., et Cross, S. (2009). Meta-analysis of early intensive behavioral intervention for children with autism. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 38(3), 439–450.

Elkind, D. (2001). Thinking about children's play. *Child Care Information Exchange*, 5, 1–27.

Elsabbagh, M., et Johnson, M. H. (2010). Getting answers from babies about autism. *Trends in Cognitive Science*, 14(2), 81-87.

Elsabbagh, M., Holmboe, K., Gliga, T., Mercure, E., Hudry, K., Charman, T., Baron-Cohen, S., Bolton, P., and Johnson, M.H. (2011). Social and attention factors during infancy and the later emergence of autism characteristics. *Dans Progress in Brain Research*, (Elsevier), pp. 195–207.

Escalona, A., Field, T., Singer-Strunck, R., Cullen, C., et Hartshorn, K. (2001). Brief report: improvements in the behavior of children with autism following massage therapy. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31(5), 513–516.

Esler, A.N., Bal, V.H., Guthrie, W., Wetherby, A., Weismer, S.E., et Lord, C. (2015). The Autism Diagnostic Observation Schedule, toddler module: Standardized severity scores. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(9), 2704–2720.

Estes, A., Hus, V., et Elder, L. (2011). Family adaptive functioning in autism. *Dans Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1182–1195.

Estes, A., Munson, J., Dawson, G., Koehler, E., Zhou, X., et Abbott, R. (2009). Parenting stress and psychological functioning among mothers of preschool children with autism and developmental delay. *Autism*, 13(4), 375-387.

Estes, A., Olson, E., Sullivan, K., Greenson, J., Winter, J., Dawson, G., et Munson, J. (2013). Parenting-related stress and psychological distress in mothers of toddlers with autism spectrum disorders. *Brain and Development*, 35(2), 133-138.

Estes, A., Vismara, L., Mercado, C., Fitzpatrick, A., Elder, L., Greenson, J., Lord, C., Munson, J., Winter, J., Young, G., et al. (2014). The impact of parent-delivered intervention

on parents of very young children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(2), 353–365.

Fanning, R.M., et Gaba, D.M. (2007). The role of debriefing in simulation-based learning. simulation in healthcare. *The Journal of the Society for Simulation in Healthcare*, 2(2), 115–125.

Fédération québécoise des centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement (2005). Offre de service: Les centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement (Fédération québécoise des centres de réadaptation en déficience intellectuelle et en troubles envahissants du développement).

Feilzer, M.Y. (2010). Doing mixed methods research pragmatically: Implications for the rediscovery of pragmatism as a research paradigm. *Journal of Mixed Methods Research*, 4(1), 6–16.

Fenson, L., Dale, P. S., Reznick, J. S. Thal, D. Bates, E., Hartung J. P., ... Reilly, J. S. (1993). *The MacArthur Communicative Development Inventories: User's guide and technical manual*. (Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing Co).

Flanagan, J. E., Landa, R., Bhat, A., et Bauman, M. (2012). Head Lag in Infants at Risk for Autism: A Preliminary Study. *American Journal of Occupational Therapy*, 66(5), 577–585.

Fortin, M.-F., et Gagnon, J. (2015). *Fondements et étapes du processus de recherche: Méthodes quantitatives et qualitatives* (Montreal, Qc: Chenelière Éducation).

Freeman, B. J., Ritvo, E. R., Yokota, A., et Ritvo, A. (1986). A scale for rating symptoms of patients with the syndrome of autism in real life settings. *Journal of the American Academy of Child Psychiatry*, 25(1), 130-136.

Gaines, R., Korneluk, Y., et Desrochers, C. (2011). The act early autism project.

Ganz, M.L. (2007). The lifetime distribution of the incremental societal costs of autism. *Archives of Pediatrics & et Adolescent Medicine*, 161(4), 343–349.

Gilmore, L., et Cuskelly, M. (2009). Factor structure of the Parenting Sense of Competence scale using a normative sample. *Child: Care, Health and Development*, 35(1), 48–55.

Ginsburg, K.R., the Committee on Communications, et the Committee on Psychosocial Aspects of Child and Family Health (2007). The importance of play in promoting healthy child development and maintaining strong parent-child bonds. *Pediatrics*, 119(1), 182–191.

Goldstein, S., et Naglieri, J.A. (2011). *Encyclopedia of child behavior and development* (Boston, MA: Springer US).

Gough, D., Oliver, S., et Thomas, J. (2012). *An introduction to systematic reviews* (Sage).

Gouvernement du Québec (2015). Loi modifiant l'organisation et la gouvernance du réseau de la santé et des services sociaux notamment par l'abolition des agences régionales

Graham, F., & Rodger, S. (2010). Occupational performance coaching: enabling parents' and children's occupational performance. Dans *Occupation-centred practice with children: A practical guide for occupational therapists* (Oxford, United Kingdom: John Wiley & Sons Ltd.), pp. 203-226.

Graham, F., Rodger, S., et Ziviani, J. (2013). Effectiveness of occupational performance coaching in improving children's and mothers' performance and mothers' self-competence. *American Journal of Occupational Therapy*, 67(1), 10–18.

Grant, M.J., et Booth, A. (2009). A typology of reviews: an analysis of 14 review types and associated methodologies. *Health Information et Libraries Journal*, 26(2), 91–108.

Green, G., Brennan, L.C., et Fein, D. (2002). Intensive behavioral treatment for a toddler at high risk for autism. *Behavior Modification*, 26(1), 69–102.

Green, J., Charman, T., McConachie, H., Aldred, C., Slonims, V., Howlin, P., Couteur, A., Leadbitter, K., Hudry, K., Byford, S., et al. (2010). Parent-mediated communication-focused treatment in children with autism (PACT): a randomised controlled trial. *The Lancet*, 375(9732), 2152–2160.

Green, J., Charman, T., Pickles, A., Wan, M.W., Elsabbagh, M., Slonims, V., Taylor, C., McNally, J., Booth, R., Gliga, T., et al. (2015). Parent-mediated intervention versus no intervention for infants at high risk of autism: a parallel, single-blind, randomised trial. *The Lancet Psychiatry*, 2(2), 133–140.

Green, J., Pickles, A., Pasco, G., Bedford, R., Wan, M.W., Elsabbagh, M., Slonims, V., Gliga, T., Jones, E.J.H., Cheung, C.H.M., et al. (2017). Randomised trial of a parent-mediated intervention for infants at high risk for autism: longitudinal outcomes to age 3 years. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*.

Green, J., Wan, M.W., Guiraud, J., Holsgrove, S., McNally, J., Slonims, V., Elsabbagh, M., Charman, T., Pickles, A., Johnson, M., et al. (2013). Intervention for infants at risk of developing autism: A case series. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(11), 2502–2514.

Green, S. (2005). Systematic reviews and meta-analysis. *Singapore Medical Journal*, 46(6), 270-274.

Greenspan, S. I., et Wieder, S. (2006). *Engaging autism: Using the Floortime approach to help children relate, communicate, and think.* (Da Capo Press).

Greenspan, S.I., et Wieder, S. (2011). Relationship-based early intervention approach to autistic spectrum disorders: The Developmental, Individual Differences, Relationship-Based model (The DIR model). Dans *Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1068–1080.

Grelotti, D., Gauthier, I., et Schultz, R. (2002). Social interest and the development of cortical face specialization; what autism teaches us about face processing. *Developmental Psychobiology*, 40(3), 213-225.

Gulsrud, A. C., Jahromi, L. B., et Kasari, C. (2010). The co-regulation of emotions between mothers and their children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorder*, 40(2), 227-237.

Gulsrud, A.C., Hellemann, G., Shire, S., et Kasari, C. (2016). Isolating active ingredients in a parent-mediated social communication intervention for toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 57(5), 606–613.

Haccoun, R., et McDuff, P. (2012). Attribution et causalité des effets. Dans *Approches et Pratiques En Évaluation de Programmes*, (Montréal: Les Presses de l'Université de Montréal), pp. 109–124.

Haebig, E., McDuffie, A., et Ellis Weismer, S. (2013). Brief report: Parent verbal responsiveness and language development in toddlers on the autism spectrum. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(9), 2218–2227.

Hallgren, K.A. (2012). Computing inter-rater reliability for observational data: an overview and tutorial. *Tutorials in Quantitative Methods for Psychology*, 8(1), 23.

Hamlyn-Wright, S., Draghi-Lorenz, R., et Ellis, J. (2007). Locus of control fails to mediate between stress and anxiety and depression in parents of children with a developmental disorder. *Autism*, 11(6), 489–501.

Harker, C.M., Ibañez, L.V., Nguyen, T.P., Messinger, D.S., et Stone, W.L. (2016). The effect of parenting style on social smiling in infants at high and low risk for ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46(7), 2399–2407.

Harris, S.L., Wolchik, S.A., et Milch, R.E. (1982). Changing the speech of autistic children and their parents. *Child & et Family Behavior Therapy*, 4(2-3), 151–173.

Harrison, P., et Oakland, T. (2003). *Adaptive Behavior Assessment System, 2nd Edition (ABAS-II)* (The Psychological Corporation).

Hastings, R.P., et Brown, T. (2002). Behavior problems of children with autism, parental self-efficacy, and mental health. *American Journal of Mental Retardation*, 107(4), 222–232.

Helm, D. T., et Kozloff, M. A. (1986). Research on parent training: Shortcomings and remedies. *Journal of autism and developmental disorders* 16(1), 1-22

Higgins J. P. T., et Green S. (2006). *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions* 4.2.6, *Cochrane Library* 4. (Chichester, UK: John Wiley et Sons, Ltd).

Hilton, J.C. (2005). Communication skills of young children diagnosed with autism: Comparative effectiveness of applied behavior analysis and developmental, individual-difference, relationship-based interventions. James Madison University.

Hodgetts, S., Nicholas, D., Zwaigenbaum, L., et McConnell, D. (2013). Parents' and professionals' perceptions of family-centered care for children with autism spectrum disorder across service sectors. *Social Science & et Medicine*, *96*, 138–146.

Howlin, P., Magiati, I., et Charman, T. (2009). Systematic review of early intensive behavioral interventions for children with autism. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, *114*(1), 23–41.

Hoyson, M., Jamieson, B., et Strain, P.S. (1984). Individualized group instruction of normally developing and autistic-like children: The LEAP curriculum model. *Journal of Early Intervention*, *8*(2), 157–172.

Hume, K., et Odom, S.L. (2011). Best practice, policy, and future directions: Behavioral and psychosocial interventions. Dans *Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1295–1308.

Ingersoll, B., et Wainer, A. (2013). Initial efficacy of Projet ImPACT: A parent-mediated social communication intervention for young children with ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *43*(12), 2943-2952.

Ingersoll, B., Meyer, K., Bonter, N., et Jelinek, S. (2012). A comparison of developmental social-pragmatic and naturalistic behavioral interventions on language use and social engagement in children with autism. *Journal of Speech Language and Hearing Research*, *55*(5), 1301.

Institut national d'excellence en santé et en services sociaux (2014). L'efficacité des interventions de réadaptation et des traitements pharmacologiques pour les enfants de 2 à 12 ans ayant un trouble du spectre de l'autisme (TSA).

Järbrink, K., et Knapp, M. (2001). The economic impact of autism in Britain. *Autism*, *5*(1), 7–22.

Jasmin, E., Couture, M., McKinley, P., Reid, G., Fombonne, E., et Gisel, E. (2009). Sensori-motor and daily living skills of preschool children with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *39*(2), 231–241.

Jellet, R., Wood, C.E., Giallo, R., et Seymour, M. (2015). Family functioning and behaviour problems in children with Autism Spectrum Disorders: The mediating role of parent mental health: Family functioning and autism spectrum disorders. *Clinical Psychologist*, *19*(1), 39–48.

Johnson, M. H. (2000). Functional brain development in infants: Elements of an interactive specialization framework. *Child Development*, *71*(1), 75-81.

Johnson, M. H., Griffin, R., Csibra, G., Halit, H, Farroni, T., De Haan, M., ... Richards, J. (2005). The emergence of the social brain network: Evidence from typical and atypical development. *Development and Psychopathology*, *17*(3), 599-619.

Johnston, C., et Mash, E.J. (1989). A measure of parenting satisfaction and efficacy. *Journal of Clinical Child Psychology*, *18*(2), 167–175.

Jones, E.J.H., Dawson, G., Kelly, J., Estes, A., et Jane Webb, S. J. (2017). Parent-delivered early intervention in infants at risk for ASD: Effects on electrophysiological and habituation measures of social attention: Intervention in infants at risk for ASD. *Autism Research*. *10*(5). 961-972.

Jüni, P., Altman, D.G., et Egger, M. (2001). Systematic reviews in health care: assessing the quality of controlled clinical trials. *BMJ: British Medical Journal*, *323*(7303), 42-46.

Kagan, J. (2008). In defense of qualitative changes in development. *Child Development*, *79*(6), 1606–1624.

Kaminski, J. W., Valle, L. A., Filene, J. H., et Boyle, C. L. (2008). A meta-analytic review of components associated with parent training program effectiveness. *Journal of Abnormal Child Psychology*, *36*(4), 567-589.

Karst, J.S., et Van Hecke, A.V. (2012). Parent and family impact of autism spectrum disorders: A review and proposed model for intervention evaluation. *Clinical Child and Family Psychology Review*, *15*(3), 247–277.

Kasari, C., Gulsrud, A. C., Wong, C., Kwon, S., et Locke, J. (2010). Randomized controlled caregiver mediated joint engagement intervention for toddlers with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *40*(9), 1045-1056.

Kasari, C., Gulsrud, A., Paparella, T., Hellemann, G., et Berry, K. (2015). Randomized comparative efficacy study of parent-mediated interventions for toddlers with autism. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, *83*(3), 554–563.

Kasari, C., Siller, M., Huynh, L.N., Shih, W., Swanson, M., Hellemann, G.S., et Sugar, C.A. (2014). Randomized controlled trial of parental responsiveness intervention for toddlers at high risk for autism. *Infant Behavior and Development*, *37*(4), 711–721.

Kashinath, S., Woods, J., et Goldstein, H. (2006). Enhancing generalized teaching strategy use in daily routines by parents of children with autism. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *49*(3), 466–485.

Keen, D., Couzens, D., Muspratt, S., et Rodger, S. (2010). The effects of a parent-focused intervention for children with a recent diagnosis of autism spectrum disorder on parenting stress and competence. *Research in Autism Spectrum Disorders*, *4*(2), 229–241.

Kessler, D., et Graham, F. (2015). The use of coaching in occupational therapy: An integrative review. *Australian Occupational Therapy Journal*, *62*(3), 160–176.

- Kiresuk, T.J., et Sherman, R.E. (1968). Goal Attainment Scaling: A general method for evaluating comprehensive community mental health programs. *Community Mental Health Journal*, 4(6), 443–453.
- Knapp, M., Romeo, R., et Beecham, J. (2009). Economic cost of autism in the UK. *Autism*, 13(3), 317–336.
- Koegel, L. (1995). Communication and language intervention. Dans *Teaching Children with Autism*, (Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing.), pp. 17–32.
- Koegel, L.K. (2000). Interventions to facilitate communication in autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30(5), 383–391.
- Koegel, R.L., Bimbela, A., et Schreibman, L. (1996). Collateral effects of parent training on family interactions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 26(3), 347–359.
- Koegel, R.L., et Koegel, L.K. (2006). *Pivotal response treatments for autism*. (Baltimore, MD: Paul H. Brookes).
- Koegel, R.L., Rincover, A., et Egel, A.L. (1982). *Educating and understanding autistic children* (College-Hill Press).
- Kübler-Ross, E. (1969). *On death and dying* (New York: Macmillan).
- Kuhl, P. K. (2007). Is speech learning “gated” by the social brain?. *Developmental Science*, 10(1), 110–120.
- Kuhl, P. K., Coffey-Corina, S., Padden, D., et Dawson, G. (2005). Links between social and linguistic processing of speech in preschool children with autism: Behavioral and electrophysiological evidence. *Developmental Science*, 8(1), 1–12.
- Kuhn, J.C., et Carter, A.S. (2006). Maternal self-efficacy and associated parenting cognitions among mothers of children with autism. *American Journal of Orthopsychiatry*, 76(4), 564–575.
- Lacharité, C., Éthier, L., et Piché, C. (1992). Le stress parental chez les mères d’enfants d’âge préscolaire : validation et normes québécoises pour l’Inventaire de Stress Parental. *Santé mentale au Québec*, 17(2), 183–203.
- Landa, R. (2007). Early communication development and intervention for children with autism. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 13(1), 16–25.
- Landa, R., et Garrett-Mayer, E. (2006). Development in infants with autism spectrum disorders: a prospective study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 47(6), 629–638.
- Landa, R.J., Holman, K.C., O’Neill, A.H., et Stuart, E.A. (2011). Intervention targeting development of socially synchronous engagement in toddlers with autism spectrum disorder:

a randomized controlled trial: RCT of social intervention for toddlers with ASD. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 52(1), 13–21.

Lang, R., Machalicek, W., Rispoli, M., et Regehr, A. (2009). Training parents to implement communication interventions for children with autism spectrum disorders (ASD): A systematic review. *Evidence-Based Communication Assessment and Intervention* 3(3), 174–190.

Lang, R., O'Reilly, M., Healy, O., Rispoli, M., Lydon, H., Streusand, W., Davis, T., Kang, S., Sigafoos, J., Lancioni, G., et al. (2012). Sensory integration therapy for autism spectrum disorders: A systematic review. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6(3), 1004–1018.

Larsen, D.L., Attkisson, C.C., Hargreaves, W.A., et Nguyen, T.D. (1979). Assessment of client/patient satisfaction: Development of a general scale. *Evaluation and Program Planning*, 2(3), 197–207.

Lavoie, A., et Fontaine, C. (2016). Mieux connaître la parentalité au Québec: Un portrait à partir de l'Enquête québécoise sur l'expérience de 0 à 5 ans 2015 (Québec, Qc: Institut de la statistique du Québec).

Law, M., Baptiste, S., Carswell, A., McColl, M.A., Polatajko, H.J., et Pollock, N. (2005). *Canadian Occupational Performance Measure* (4th ed.) (Ottawa, ON: CAOT Publications ACE).

Law, M., Hanna, S., King, G., Hurley, P., King, S., Kertoy, M., et Rosenbaum, P. (2003). Factors affecting family-centred service delivery for children with disabilities. *Child: Care, Health and Development*, 29(5), 357–366.

Lecavalier, L., Leone, S., et Wiltz, J. (2006). The impact of behaviour problems on caregiver stress in young people with autism spectrum disorders. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(3), 172–183.

Leichner, P., et Perreault, M. (1990). Développement et validation d'une échelle multidisciplinaire de satisfaction de patients de services d'hospitalisation en psychiatrie (Centre de Psychiatrie communautaire: Centre hospitalier Douglas).

Loh, A., Soman, T., Brian, J., Bryson, S. E., Roberts, W., Szatmari, P., ... Zwaigenbaum, L. (2007). Stereotyped Motor Behaviors Associated with Autism in High-risk Infants: A Pilot Videotape Analysis of a Sibling Sample. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(1), 25–36.

Lord C, Rutter, M., DiLavore, P., et Risi, S. (2001). *Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) manual*. (Los Angeles, CA: Western Psychological Services).

Lord, C., Luyster, R., Guthrie, W., et Pickles, A. (2012). Patterns of developmental trajectories in toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 80(3), 477–489.

Losardo, A., McCullough, K.C., et Lakey, E.R. (2016). Neuroplasticity and young children with autism: A tutorial. *Anatomy & Physiology: Current Research*, 6(2), 1-5.

Lovaas, O.I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 55(1), 3-9.

Luther, E.H., Canham, D.L., et Young, C.V. (2005). Coping and social support for parents of children with autism. *The Journal of School Nursing: The Official Publication of the National Association of School Nurses*, 21(1), 40-47.

Luyster, R., Gotham, K., Guthrie, W., Coffing, M., Petrak, R., Pierce, K., Bishop, S., Esler, A., Hus, V., Oti, R., et al. (2009). The Autism Diagnostic Observation Schedule—toddler module: A New module of a standardized diagnostic measure for autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39(9), 1305-1320.

Machalicek, W., O'Reilly, M.F., Beretvas, N., Sigafoos, J., Lancioni, G., Sorrells, A., Lang, R., et Rispoli, M. (2008). A review of school-based instructional interventions for students with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 2(3), 395-416.

Mackintosh, V.H., Myers, B.J., et Goin-Kochel, R.P. (2005). Sources of information and support used by parents of children with autism spectrum disorders. *Journal on Developmental Disabilities*, 12(1), 41-51.

Maestro, S., Muratori, F., Cavallaro, M. C., Pei, F., Stern, D., Golse, B., et Palacio-Espasa, F. (2002). Attentional skills during the first 6 months of age in autism spectrum disorder. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 41(10), 1239-1245.

Mahoney, G., et Perales, F. (2003). Using relationship-focused intervention to enhance the social emotional functioning of young children with autism spectrum disorders. *Topics in Early Childhood Special Education*, 23(2), 74-86.

Mahoney, G., et Perales, F. (2005). Relationship-focused early intervention with children with pervasive developmental disorders and other disabilities: A comparative study. *Journal of Developmental & et Behavioral Pediatrics*, 26(2), 77-85.

Mahoney, G., et Wheeden, C.A. (1998). The effects of teacher style on the interactive engagement of preschool-aged children with disabilities. *Journal of Developmental and Learning Disorders*, 2, 293-315.

Makrygianni, M.K., et Reed, P. (2010). A meta-analytic review of the effectiveness of behavioural early intervention programs for children with Autistic Spectrum Disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 4(4), 577-593.

Matson, M. L., Mahan, S., et Matson, J. L. (2009). Parent training: A review of methods for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3(4), 868-875.

McConachie, H., et Diggle, T. (2007). Parent implemented early intervention for young children with autism spectrum disorder: A systematic review. *Journal of Evaluation in Clinical Practice*, *13*(1), 120-129.

McConachie, H., Fletcher-Watson, S., et Working Group 4, COST Action “Enhancing the Scientific Study of Early Autism” (2015). Building capacity for rigorous controlled trials in autism: the importance of measuring treatment adherence: Treatment adherence in autism intervention trials. *Child: Care, Health and Development*, *41*(2), 169–177.

McConachie, H., Randle, V., Hammal, D., et Le Couteur, A. (2005). A controlled trial of a training course for parents of children with suspected autism spectrum disorder. *The Journal of Pediatrics*, *147*(3), 335–340.

McDuffie, A., et Yoder, P. (2010). Types of parent verbal responsiveness that predict language in young children with autism spectrum disorder. *Journal of Speech Language and Hearing Research*, *53*(4), 1026.

McEachin, J.J., Smith, T., et Ivar Lovaas, O. (1993). Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *American Journal of Mental Retardation*, *97*, 359–359.

McLaughlin, J.A., et Jordan, G.B. (2004). Using logic models. Dans *Handbook of Practical Program Evaluation*, (San Francisco: Jossey-Bass), pp. 7–32.

McStay, R.L., Dissanayake, C., Scheeren, A., Koot, H.M., et Begeer, S. (2014). Parenting stress and autism: The role of age, autism severity, quality of life and problem behaviour of children and adolescents with autism. *Autism*, *18*(5), 502–510.

Meadan, H., Ostrosky, M. M., Zaghlawan, H. Y., et Yu, S. (2009). Promoting the social and communicative behavior of young children with autism spectrum disorders A review of parent-implemented intervention studies. *Topics in Early Childhood Special Education*, *29*(2), 90-104.

Midence, K., et O’neill, M. (1999). The Experience of Parents in the Diagnosis of Autism A Pilot Study. *Autism*, *3*(3), 273–285.

Miles, M.B., Huberman, A.M., et Saldana, J. (2014). *Qualitative data analysis: A methods sourcebook*. (Thousand Oaks, California: Sage publications).

Miles, M.B., Huberman, A.M., et Saldana, J. (2014). *Qualitative data analysis: A methods sourcebook*. (Thousand Oaks, California: Sage publications).

Miller, J.S., Gabrielsen, T., Villalobos, M., Alleman, R., Wahmhoff, N., Carbone, P.S., et Segura, B. (2011). The Each Child study: Systematic screening for autism spectrum disorders in a pediatric setting. *Pediatrics*, *127*(5), 866-871.

Ministère de la santé et des services sociaux (2003). Un geste porteur d'avenir des services aux personnes présentant un trouble envahissant du développement, à leurs familles et à leurs proches (Québec, Qc: Ministère de la santé et services sociaux).

Ministère de la santé et des services sociaux (2012). Un geste porteur d'avenir: des services aux personnes présentant un trouble envahissant du développement, à leurs familles et à leurs proches : bilan 2008-2011 et perspectives (Québec, Qc: Ministère de la santé et des services sociaux, Direction des communications).

Ministère de la santé et des services sociaux (2017). Des actions structurantes pour les personnes et leur famille: Plan d'action sur le trouble du spectre de l'autisme 2017-2022 (Québec, Qc: Ministère de la santé et des services sociaux, Direction des communication).

Ministère de la santé et des services sociaux du Québec (2015). Réorganisation du réseau.

Mori, K., Ujiie, T., Smith, A., et Howlin, P. (2009). Parental stress associated with caring for children with Asperger's syndrome or autism. *Pediatrics International*, 51(3), 364-370.

Narayan, M.C. (2002). Six steps towards cultural competence: A clinician's guide. *Home Health Care Management & et Practice*, 14(5), 378-386.

National Autism Center (2015). Findings and conclusions: National standards project, phase 2 (Randolph, MA).

National Research Council (U.S.), et Committee on Educational Interventions for Children with Autism (2001). *Educating children with autism* (Washington, DC: National Academy Press).

Nefdt, N., Koegel, R., Singer, G., et Gerber, M. (2010). The use of a self-directed learning program to provide introductory training in Pivotal Response Treatment to parents of children with autism. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 12(1), 23-32.

Negri, L., et Castorina, L. (2014). *Family adaptation to a diagnosis of autism spectrum disorder*. (New York, NY: Springer), p.

Nelson, D.L., Gergenti, E., et Hollander, A.C. (1980). Extra prompts versus no extra prompts in self-care training of autistic children and adolescents. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 10(3), 311-321.

Newschaffer, C.J., Croen, L.A., Daniels, J., Giarelli, E., Grether, J.K., Levy, S.E., Mandell, D.S., Miller, L.A., Pinto-Martin, J., Reaven, J., et al. (2007). The epidemiology of autism spectrum disorders. *Public Health*, 28, 235-258.

Nguyen, T.D., Attkisson, C.C., et Stegner, B.L. (1983). Assessment of patient satisfaction: development and refinement of a service evaluation questionnaire. *Evaluation and Program Planning*, 6(3-4), 299-313.

Noisieux, M. (2017). Troubles du spectre de l'autisme et autres handicaps. Portfolio thématique. Longueuil : Centre intégré de santé et services sociaux de la Montérégie-Centre, Direction de santé publique, Surveillance de l'état de santé de la population.

Odom, S. L., Boyd, B. A., Hall, L. J. et Hume, K. (2010b). Evaluation of comprehensive treatment models for individuals with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(4), 425-436.

Odom, S.L., Collet-Klingenberg, L., Rogers, S.J., et Hatton, D.D. (2010a). Evidence-based practices in interventions for children and youth with autism spectrum disorders. preventing school failure. *Alternative Education for Children and Youth*, 54(4), 275–282.

Ogilvie, E., et McCrudden, M.T. (2017). Evaluating the social validity of the Early Start Denver Model: A convergent mixed methods study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 47(9), 2899–2910.

Oono, I.P., Honey, E.J., et McConachie, H. (2013). Parent-mediated early intervention for young children with autism spectrum disorders (ASD). Dans *Cochrane Database of Systematic Reviews*, The Cochrane Collaboration, ed. (Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd), p.

Oosterling, I., Visser, J., Swinkels, S., Rommelse, N., Donders, R., Woudenberg, T., ...Buitelaar, J. (2010). Randomized controlled trial of the focus parent training for toddlers with autism: 1-year outcome. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(12), 1447-1458.

Osborne, L.A., McHugh, L., Saunders, J., et Reed, P. (2007). Parenting stress reduces the effectiveness of early teaching interventions for autistic spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38(6), 1092–1103.

Ospina, M.B., Seida, J.K., Clark, B., Karkhanavaz, M., Hartling, L., Tjosvold, L., Vandermeer, B., et Smith, V. (2008). Behavioural and developmental interventions for autism spectrum disorder: A clinical systematic review. *PLoS ONE*, 3(11), e3755.

Osterling, J., et Dawson, G. (1994). Early recognition of children with autism: A study of first birthday home videotapes. *Journal of autism and developmental disorders*, 24(3), 247-257.

Pajareya, K., et Nopmaneejumrulers, K. (2011). A pilot randomized controlled trial of DIR/Floortime™ parent training intervention for pre-school children with autistic spectrum disorders. *Autism*, 15(5), 563–577.

Palmen, A., Didden, R., et Lang, R. (2012). A systematic review of behavioral intervention research on adaptive skill building in high-functioning young adults with autism spectrum disorder. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6(2), 602–617.

Paquette, F., et Chagnon, F. (2000). Cadre de référence pour le développement et l'évaluation des programmes aux centres jeunesse de Montréal.

- Patterson, S. Y., Smith, V., et Mirenda, P. (2012). A systematic review of training programs for parents of children with autism spectrum disorders: Single subject contributions. *Autism, 16*(5), 498-522.
- Patterson, S.Y., Elder, L., Gulsrud, A., et Kasari, C. (2014). The association between parental interaction style and children's joint engagement in families with toddlers with autism. *Autism, 18*(5), 511-518.
- Patterson, S.Y., et Smith, V. (2011). The experience of parents of toddlers diagnosed with autism spectrum disorder in the More Than Words Parent education program. *Infants & et Young Children, 24*(4), 329-343.
- Perreault, M., et Leichner, P., and others (1993). Patient satisfaction with outpatient psychiatric services: Qualitative and quantitative assessments. *Evaluation and Program Planning, 16*(2), 109-118.
- Perreault, M., Leichner, P., Sabourin, S., et Gendreau, P. (1992). Caractéristiques psychométriques de la version canadienne-française d'une échelle de satisfaction pour patients hospitalisés en psychiatrie. *Canadian Journal of Psychiatry, 37*(4), 221-227.
- Peters-Scheffer, N., Didden, R., Korzilius, H., et Sturmey, P. (2011). A meta-analytic study on the effectiveness of comprehensive ABA-based early intervention programs for children with Autism Spectrum Disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders, 5*(1), 60-69.
- Pierce, K., Carter, C., Weinfeld, M., Desmond, J., Hazin, R., Bjork, R., et Gallagher, N. (2011). Detecting, studying, and treating autism early: The one-year well-baby check-up approach. *The Journal of Pediatrics, 159*(3), 458-465.
- Pisterman, S., Firestone, P., McGrath, P., Goodman, J. T., Webster, I., Mallory, R., et Goffin, B. (1992). The role of parent training in treatment of preschoolers with ADDH. *American Journal of Orthopsychiatry, 62*(3), 397-408.
- Powell, S.B., Newman, H.A., McDonald, T.A., Bugenhagen, P., et Lewis, M.H. (2000). Development of spontaneous stereotyped behavior in deer mice: Effects of early and late exposure to a more complex environment. *Developmental Psychobiology, 37*(2), 100-108.
- Prizant, B.M. (1982). Speech-language pathologists and autistic children: What is our role?. *Asha, 24*(7), 463-468.
- Prizant, B.M., et Meyer, E.C. (1993). Socioemotional aspects of language and social-communication disorders in young children and their families. *American Journal of Speech-Language Pathology, 2*(3), 56.
- Prizant, B.M., et Wetherby, A.M. (1998). Understanding the continuum of discrete-trial traditional behavioral to social-pragmatic developmental approaches in communication enhancement for young children with autism/PDD. *Seminars in Speech and Language, 19*(4), 329-353.

Prizant, B.M., Wetherby, A.M., Rubin, E., et Laurent, A.C. (2003). The SCERTS Model: A transactional, family-centered approach to enhancing communication and socioemotional abilities of children with autism spectrum disorder. *Infants & et Young Children*, 16(4), 296-316.

Prizant, B.M., Wetherby, A.M., Rubin, E., et Laurent, A.C. (2010). The SCERTS Model and Evidence-Based Practice.

Prizant, B.M., Wetherby, A.M., Rubin, E., Laurent, A.C., et Rydell, P.J. (2005). The SCERTS [TM] Model: A comprehensive educational approach for children with autism spectrum disorders. (Baltimore, MD: Brookes Publishing).

Prizant, B.M., Wetherby, A.M., Rubin, E., Laurent, A.C., et Rydell, P.J. (2006). The SCERTS® Model: Volume I Assessment; Volume II Program planning and intervention (Baltimore, MD: Brookes Publishing).

Reichow, B., Steiner, A.M., et Volkmar, F. (2013). Cochrane Review: Social skills groups for people aged 6 to 21 with autism spectrum disorders (ASD). *Evidence-Based Child Health: A Cochrane Review Journal*, 8(2), 266–315.

Reilly, S., Bavin, E. L., Bretherton, L., Conway, L., Eadie, P., Cini, E., ... et Wake, M. (2009). The Early Language in Victoria Study (ELVS): A prospective, longitudinal study of communication skills and expressive vocabulary development at 8, 12 and 24 months. *International Journal of Speech and Language Pathology*, 11(5), 344-357.

Reitman, D., Currier, R.O., et Stickle, T.R. (2002). A critical evaluation of the Parenting Stress Index-Short Form (PSI-SF) in a Head Start Population. *Journal of Clinical Child et Adolescent Psychology*, 31(3), 384–392.

Ridde, V., et Dagenais, C. (2012). *Approches et pratiques en évaluation de programmes* (Montréal, QC: Les Presses de l'Université de Montréal).

Robbins, F.R., Dunlap, G., et Plienis, A.J. (1991). Family characteristics, family training, and the progress of young children with autism. *Journal of Early Intervention*, 15(2), 173–184.

Roberts, J.M.A., Prior, M.R., Australia, et Department of Health and Ageing (2006). A review of the research to identify the most effective models of practice in early intervention for children with autism spectrum disorders (Canberra: Dept. of Health and Ageing).

Robins, D.L., Casagrande, K., Barton, M., Chen, C.-M.A., Dumont-Mathieu, T., et Fein, D. (2014). Validation of the modified checklist for autism in toddlers, revised with follow-up (M-CHAT-R/F). *Pediatrics*, 133(1), 37–45.

Robins, D.L., Fein, D., Barton, M.L., et Green, J.A. (2001). The Modified Checklist for Autism in Toddlers: An initial study investigating the early detection of autism and pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31(2), 131–144.

- Robins, D.L., Fein, D., et Barton, M. (2009a). Modified checklist for autism in toddlers, revised, with follow-up (M-CHAT-R/F) TM.
- Robins, D.L., Fein, D., et Barton, M. (2009b). Modified checklist for autism in toddlers, revised, with follow-up (M-CHAT-R/F) Version canadienne française.
- Rocha, M.L., Schreibman, L., et Stahmer, A.C. (2007). Effectiveness of training parents to teach joint attention in children with autism. *Journal of Early Intervention*, 29(2), 154–172.
- Rodrigue, J.R., Morgan, S.B., et Geffken, G. (1990). Families of autistic children: Psychological functioning of mothers. *Journal of Clinical Child Psychology*, 19(4), 371–379.
- Rogers, S. (2016). Early Start Denver Model. Dans *Comprehensive models of autism spectrum disorder treatment*, R.G. Romanczyk, et J. McEachin, eds. (Cham: Springer International Publishing), pp. 45–62.
- Rogers, S.J., Dawson, G., et Vismara, L.A. (2012b). *An early start for your child with autism: Using everyday activities to help kids connect, communicate, and learn* (New York, NY: The Guilford Press).
- Rogers, S.J., Estes, A., Lord, C., Vismara, L., Winter, J., Fitzpatrick, A., Guo, M., et Dawson, G. (2012a). Effects of a brief Early Start Denver Model (ESDM)–based parent intervention on toddlers at risk for autism spectrum disorders: A randomized controlled trial. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 51(10), 1052–1065.
- Rogers, S.J., et Dawson, G. (2010). *Early Start Denver Model for young children with autism: Promoting language, learning, and engagement* (Guilford Press).
- Rogers, S.J., et Vismara, L.A. (2008). Evidence-based comprehensive treatments for early autism. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 37(1), 8–38.
- Rogers, S.J., et Wallace, K.S. (2011). *Intervention for Infants and Toddlers with Autism Spectrum Disorders*. Dans *Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1081–1094.
- Rogers, S.J., Hayden, D., Hepburn, S., Charlifue-Smith, R., Hall, T., et Hayes, A. (2006). Teaching young nonverbal children with autism useful speech: a pilot study of the denver model and PROMPT interventions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36(8), 1007–1024.
- Rogers, S.J., Vismara, L., Wagner, A.L., McCormick, C., Young, G., et Ozonoff, S. (2014). Autism treatment in the first year of life: A pilot study of infant start, a parent-implemented intervention for symptomatic Infants. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(12), 2981–2995.
- Rosenblum, K.L., Dayton, C.J., et Muzik, M. (2009). Infant social and emotional development. *Handbook of Infant Mental Health*, 80–103.

- Rossi, P.H., Lipsey, M.W., et Freeman, H.E. (2003). *Evaluation: A systematic approach* (Sage publications).
- Rossmann, G.B., et Rallis, S.F. (1998). *Learning in the field: An introduction to qualitative research* (Thousand Oaks, California: Sage Publications).
- Ruble, L., McDuffie, A., King, A.S., et Lorenz, D. (2008). Caregiver responsiveness and social interaction behaviors of young children with autism. *Topics in Early Childhood Special Education*, 8(3), 158-170.
- Ruble, L., McGrew, J.H., et Toland, M.D. (2012). Goal Attainment Scaling as an outcome measure in randomized controlled trials of psychosocial interventions in autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 42(9), 1974–1983.
- Rutter, M., Le Couteur, A., et Lord, C. (2003). ADI-R: Autism diagnostic interview-revised WPS edition. (Los Angeles: Western Psychological Services).
- Ryan, G.W., et Bernard, H.R. (2003). Techniques to identify themes. *Field Methods*, 15(1), 85–109.
- Sallows, G.O., Graupner, T.D., et MacLean Jr, W.E. (2005). Intensive behavioral treatment for children with autism: Four-year outcome and predictors. *American Journal on Mental Retardation*, 110(6), 417–438.
- Sameroff, A.J. (1993). Models of development and developmental risk.
- Sameroff, A.J., et Fiese, B.H. (2000). Transactional regulation: The developmental ecology of early intervention. *Handbook of Early Childhood Intervention*, 2, 135–159.
- Sameroff, A.J., et Mackenzie, M.J. (2003). Research strategies for capturing transactional models of development: The limits of the possible. *Development and Psychopathology*, 15(3), 613-640.
- Sanders, M.R., et Woolley, M.L. (2005). The relationship between maternal self-efficacy and parenting practices: Implications for parent training. *Child: Care, Health and Development*, 31(1), 65–73.
- Schaaf, R.C., Benevides, T.W., Kelly, D., et Mailloux-Maggio, Z. (2012). Occupational therapy and sensory integration for children with autism: a feasibility, safety, acceptability and fidelity study. *Autism*, 16(3), 321–327.
- Schaaf, R.C., et Miller, L.J. (2005). Occupational therapy using a sensory integrative approach for children with developmental disabilities. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 11(2), 143–148.
- Schertz, H.H., et Odom, S.L. (2007). Promoting joint attention in toddlers with autism: a parent-mediated developmental model. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(8), 1562–1575.

Schertz, H.H., Odom, S.L., Baggett, K.M., et Sideris, J.H. (2013). Effects of joint attention mediated learning for toddlers with autism spectrum disorders: An initial randomized controlled study. *Early Childhood Research Quarterly*, 28(2), 249–258.

Schreibman, L., Dawson, G., Stahmer, A. C., Landa, R., Rogers, S. J., McGee, G. G., ... Halladay, A. (2015). Naturalistic Developmental Behavioral Interventions: Empirically Validated Treatments for Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(8), 2411–2428.

Schreibman, L., et Ingersol, B. (2011). Naturalistic approaches to early behavioral intervention. Dans *Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1056–1065.

Schreibman, L., et Koegel, R.L. (1996). Fostering self-management: Parent-delivered pivotal response training for children with autistic disorder.

Schreibman, L., et Koegel, R.L. (2005). Training for parents of children with autism: Pivotal responses, generalization, and individualization of interventions. Hibbs & et PS Jensen (Eds.), *Psychosocial Treatments for Child and Adolescent Disorders: Empirically Based Strategies for Clinical Practice*, 605–631.

Schwenck, C., Schneider, W., et Reichert, A. (2015). Universal parent training as a supplement to inpatient psychiatric treatment for children and adolescents. *European Child et Adolescent Psychiatry*, 25(8), 879–889.

Sherman, J., Barker, P., Lorimer, P., Swinson, R., et Factor, D.C. (1988). Treatment of autistic children: relative effectiveness of residential, out-patient and home-based interventions. *Child Psychiatry & et Human Development*, 19(2), 109–125.

Shire, S. Y., Gulsrud, A., et Kasari, C. (2016). Increasing responsive parent–child interactions and joint engagement: Comparing the influence of parent-mediated intervention and parent psychoeducation. *Journal of autism and developmental disorders* 46(5), 1737–1747.

Siller, M., et Sigman, M. (2002). The behaviors of parents of children with autism predict the subsequent development of their children's communication. *Journal of autism and developmental disorders*, 32(2), 77–89.

Siller, M., et Sigman, M. (2008). Modeling longitudinal change in the language abilities of children with autism: Parent behaviors and child characteristics as predictors of change. *Developmental Psychology*, 44(6), 1691.

Siller, M., Hutman, T., et Sigman, M. (2013). A parent-mediated intervention to increase responsive parental behaviors and child communication in children with asd: a randomized clinical trial. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(3), 540–555.

Siller, M., Morgan, L., Turner-Brown, L., Baggett, K. M., Baranek, G. T., Brian, J., ... et Kasari, C. (2013). Designing studies to evaluate parent-mediated interventions for toddlers with autism spectrum disorder. *Journal of Early Intervention*, 35(4), 355-377.

Siller, M., Swanson, M., Gerber, A., Hutman, T., et Sigman, M. (2014). A parent-mediated intervention that targets responsive parental behaviors increases attachment behaviors in children with ASD: Results from a randomized clinical trial. *Journal of autism and developmental disorders*, 44(7), 1720-1732.

Silva, L.M.T., Schalock, M., et Gabrielsen, K. (2011). Early intervention for autism with a parent-delivered qigong massage program: a randomized controlled trial. *American Journal of Occupational Therapy*, 65(5), 550-559.

Singer, G.H., et Floyd, F. (2006). Meta-analysis of comparative studies of depression in mothers of children with and without developmental disabilities. *American Journal on Mental Retardation*, 111(3), 155-169.

Smith, T. (2011). Applied behavior analysis and early intensive intervention. Dans *Autism Spectrum Disorders*, (New York, NY: Oxford University Press), pp. 1037-1055.

Smith, T., Groen, A.D., et Wynn, J.W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *American Journal on Mental Retardation*, 105(4), 269-285.

Smith, T., Seahill, L., Dawson, G., Guthrie, D., Lord, C., Odom, S., Rogers, S., et Wagner, A. (2007). Designing research studies on psychosocial interventions in autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(2), 354-366.

Smith, T.B., Oliver, M.N., et Innocenti, M.S. (2001). Parenting stress in families of children with disabilities. *American Journal of Orthopsychiatry*, 71(2), 257.

Sofronoff, K., et Farbotko, M. (2002). The effectiveness of parent management training to increase self-efficacy in parents of children with Asperger syndrome. *Autism*, 6(3), 271-286.

Solomon, R., Necheles, J., Ferch, C., et Bruckman, D. (2007). Pilot study of a parent training program for young children with autism: the PLAY Project Home Consultation program. *Autism*, 11(3), 205-224.

Sroufe, L.A., Carlson, E.A., Levy, A.K., et Egeland, B. (1999). Implications of attachment theory for developmental psychopathology. *Development and Psychopathology* 11(1), 1-13.

St-Germain, R. (2009). Pour une meilleure continuité dans les services, les approches et les rapports humains: Rapport spécial du protecteur du citoyen sur les services gouvernementaux destinés aux enfants présentant un trouble envahissant du développement (Québec: Direction des communications, Protecteur du citoyen, Assemblée nationale).

Stadnick, N.A., Stahmer, A., et Brookman-Frazee, L. (2015). Preliminary effectiveness of project ImPACT: A parent-mediated intervention for children with autism spectrum disorder

delivered in a community program. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(1), 2092-2104.

Stahmer, A.C., et Pellecchia, M. (2015). Moving towards a more ecologically valid model of parent-implemented interventions in autism. *Autism*, 19(3), 259–261.

Statistique Canada (2016). Les familles de recensement comprennent les familles comptant un couple, avec ou sans enfants, et les familles monoparentales.

Steiner, A.M., Gengoux, G.W., Klin, A., et Chawarska, K. (2013). Pivotal Response Treatment for infants at-risk for autism spectrum disorders: A pilot study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(1), 91–102.

Stipanivic, A., Couture, G., Rivest, C., et Rousseau, M. (2014). Développement des modèles théoriques d'un programme destiné à des parents d'enfants présentant un trouble du spectre de l'autisme. *Journal on Developmental Disabilities*, 20(3), 19–29.

Stone, W. L., Coonrod, E. E., Turner, L. M., et Pozdol, S. L. (2004). Psychometric Properties of the STAT for Early Autism Screening. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34(6), 691–701.

Tarbox, J., Dixon, D.R., Sturmey, P., et Matson, J.L. (2014). *Handbook of Early Intervention for Autism Spectrum Disorders* (New York, NY: Springer New York).

Tashakkori, A., et Creswell, J.W. (2007). Editorial: The New Era of Mixed Methods. *Journal of Mixed Methods Research*, 1(1), 3–7.

Terrisse, B., et Trudelle, D. (1988). Questionnaire d'autoévaluation de la compétence éducative parentale (QAECEP). Adaptation et traduction du Parenting sense of competence (1977).

Tonge, B., Brereton, A., Kiomall, M., Mackinnon, A., King, N., et Rinehart, N. (2006). Effects on parental mental health of an education and skills training program for parents of young children with autism: A randomized controlled trial. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 45(5), 561–569.

Tuchman, R., et Rapin, I. (2002). Epilepsy in autism. *The Lancet Neurology*, 1(6), 352–358.

Turner, C.A., Lewis, M.H., et King, M.A. (2003). Environmental enrichment: Effects on stereotyped behavior and dendritic morphology. *Developmental Psychobiology*, 43(1), 20–27.

Turner, C.A., Yang, M.C., et Lewis, M.H. (2002). Environmental enrichment: effects on stereotyped behavior and regional neuronal metabolic activity. *Brain Research*, 938(1), 15–21.

Venker, C.E., McDuffie, A., Ellis Weismer, S., et Abbeduto, L. (2012). Increasing verbal responsiveness in parents of children with autism: A pilot study. *Autism*, 16(6), 568–585.

- Ventola, P., Kleinman, J., Pandey, J., Wilson, L., Esser, E., Boorstein, H., ... Fein, D. (2007). Differentiating between Autism Spectrum Disorders and Other Developmental Disabilities in Children Who Failed a Screening Instrument for ASD. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(3), 425–436.
- Vismara, L.A., Colombi, C., et Rogers, S.J. (2009). Can one hour per week of therapy lead to lasting changes in young children with autism?. *Autism*, 13(1), 93–115.
- Vismara, L.A., et Rogers, S.J. (2008). The Early Start Denver Model: A case study of an innovative practice. *Journal of Early Intervention*, 31(1), 91–108.
- Vismara, L.A., et Rogers, S.J. (2010). Behavioral treatments in autism spectrum disorder: What do we know? *Annual Review of Clinical Psychology*, 6, 447–468.
- Vismara, L.A., McCormick, C., Young, G.S., Nadhan, A., et Monlux, K. (2013). Preliminary findings of a telehealth approach to parent training in autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(12), 2953–2969.
- Vismara, L.A., McCormick, C.E., Wagner, A.L., Monlux, K., Nadhan, A., et Young, G.S. (2016). Telehealth parent training in the Early Start Denver Model results from a randomized controlled study. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities*, 1-13.
- Vivanti, G., Paynter, J., Duncan, E., Fothergill, H., Dissanayake, C., Rogers, S.J., et Team, V.A. (2014). Effectiveness and feasibility of the Early Start Denver Model implemented in a group-based community childcare setting. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 44(12), 3140–3153.
- Volkmar, F., Chawarska, K., & Klin, A. (2005). Autism in Infancy and Early Childhood. *Annual Review of Psychology*, 56(1), 315–336.
- Warren, Z., McPheeters, M.L., Sathe, N., Foss-Feig, J.H., Glasser, A., et Veenstra-VanderWeele, J. (2011). A systematic review of early intensive intervention for autism spectrum disorders. *Pediatrics*, 127(5), e1303–e1311.
- Watson, L.R., Crais, E.R., Baranek, G.T., Turner-Brown, L., Sideris, J., Wakeford, L., Kinard, J., Reznick, J.S., Martin, K.L., et Nowell, S.W. (2017). Parent-mediated intervention for one-year-olds screened as at-risk for autism spectrum disorder: A randomized controlled trial. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 47(11), 3520–3540.
- Webb, S.J., Jones, E.J.H., Kelly, J., et Dawson, G. (2014). The motivation for very early intervention for infants at high risk for autism spectrum disorders. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 16(1), 36–42.
- Wetherby, A.M., Allen, L., Cleary, J., Kublin, K., et Goldstein, H. (2002). Validity and reliability of the Communication and Symbolic Behavior Scales Developmental Profile with very young children. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 45(6), 1202–1218.

Wetherby, A.M., Brosnan-Maddox, S., Peace, V., et Newton, L. (2008). Validation of the Infant--Toddler Checklist as a broadband screener for autism spectrum disorders from 9 to 24 months of age. *Autism*, 12(5), 487–511.

Wetherby, A.M., et Woods, J.J. (2006). Early Social Interaction Project for children with autism spectrum disorders beginning in the second year of life: A preliminary study. *Topics in Early Childhood Special Education*, 26(2), 67–82.

Wetherby, A.M., Guthrie, W., Woods, J., Schatschneider, C., Holland, R.D., Morgan, L., et Lord, C. (2014). Parent-implemented social intervention for toddlers with autism: An RCT. *Pediatrics*, 134(6), 1084–1093.

Wetherby, A.M., Watt, N., Morgan, L., et Shumway, S. (2006). Social communication profiles of children with autism spectrum disorders late in the second year of life. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37(5), 960–975.

Wetherby, A.M., Woods, J., Allen, L., Cleary, J., Dickinson, H., et Lord, C. (2004). Early indicators of autism spectrum disorders in the second year of life. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34(5), 473–493.

White, S.J. (2000). The effects of feedback on learning in discrete trial teaching of children with autism: A thesis. University of the Pacific.

Whiteside-Mansell, L., Ayoub, C., McKelvey, L., Faldowski, R.A., Hart, A., et Shears, J. (2007). Parenting stress of low-income parents of toddlers and preschoolers: Psychometric properties of a short form of the Parenting Stress Index. *Parenting*, 7(1), 26–56.

Wong, C., Odom, S.L., Hume, K.A., Cox, A.W., Fettig, A., Kucharczyk, S., Brock, M.E., Plavnick, J.B., Fleury, V.P., et Schultz, T.R. (2015). Evidence-based practices for children, youth, and young adults with autism spectrum disorder: A comprehensive review. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(7), 1951–1966.

Wong, V.C.N., et Kwan, Q.K. (2010). Randomized controlled trial for early intervention for autism: A pilot study of the autism 1-2-3 Project. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(6), 677–688.

Woods, J.J., et Brown, J.A. (2011). Integrating family capacity-building and child outcomes to support social communication development in young children with autism spectrum disorder. *Topics in Language Disorders*, 31(3), 235–246.

Young, R.L., Brewer, N., et Pattison, C. (2003). Parental identification of early behavioural abnormalities in children with autistic disorder. *Autism*, 7(2), 125–143.

Zaidman-Zait, A., Miranda, P., Zumbo, B.D., Wellington, S., Dua, V., et Kalynchuk, K. (2010). An item response theory analysis of the Parenting Stress Index-Short Form with parents of children with autism spectrum disorders: Parenting Stress Index item analysis. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51(11), 1269–1277.

Zifferblatt, S.M., Burton, S.D., Homer, R., et White, T. (1977). Establishing generalization effects among autistic children. *Journal of Autism and Childhood Schizophrenia*, 7(4), 337–347.

Zwaigenbaum, L. (2005). The Screening Tool for Autism in Two Year Olds can identify children at risk of autism. *Evidence Based Mental Health*, 8(69).

Zwaigenbaum, L. (2010). Advances in the early detection of autism. *Current Opinion in Neurology*, 23(2), 97-102.

Zwaigenbaum, L., Bauman, M.L., Choueiri, R., Kasari, C., Carter, A., Granpeesheh, D., Mailloux, Z., Roley, S.S., Wagner, S., Fein, D., et al. (2015). Early intervention for children with autism spectrum disorder under 3 years of age: Recommendations for practice and research. *Pediatrics*, 136 (Suppl 1), S60–S81.

Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Lord, C., Rogers, S., Carter, A., Carver, L., Chawarska, K., Constantino, J., Dawson, G., Dobkins, K., et al. (2009). Clinical assessment and management of toddlers with suspected autism spectrum disorder: Insights from studies of high-risk infants. *Pediatrics*, 123(5), 1383–1391.

Zwaigenbaum, L., Bryson, S., Rogers, T., Roberts, W., Brian, J., et Szatmari, P. (2005). Behavioral manifestations of autism in the first year of life. *International Journal of Developmental Neuroscience*, 23(2), 143-152.

ANNEXES

Annexe 1 Questionnaire sociodémographique

Date (aaaa/mm/jj) : ____ / ____ / ____

Code: _____
☒ T1 ☐ T2 ☐ T3 ☐ T4
Évaluateur : _____

QUESTIONNAIRE SOCIO-DÉMOGRAPHIQUE

Langues parlées à la maison

1. Langue d'usage du répondant :

- ☐ Français
- ☐ Anglais
- ☐ Espagnol
- ☐ Autre : _____

2. Langue principale parlée à la maison

- ☐ Français
- ☐ Anglais
- ☐ Espagnol
- ☐ Autre : _____

3. Dans quelle proportion l'enfant est-il exposé à cette langue à la maison? _____ %

Si la réponse à la question 2 n'est pas le français, répondez aux questions 4 et 5. Sinon, passez à la question 9.

4. L'enfant est-il exposé au français à la maison?

- ☐ Oui
- ☐ Non

5. Dans quelle proportion l'enfant est-il exposé au français à la maison? _____ %

La famille a-t-elle un niveau suffisant de français qui leur permet de profiter pleinement de cette intervention? ☐ Oui ☐ Non

Informations sur les parents

| | Parent 1 (répondant) | Parent 2 <input type="checkbox"/> Non applicable |
|---|--|--|
| 6. Lien de parenté | <input type="checkbox"/> Père <input type="checkbox"/> Mère <input type="checkbox"/> Autre : _____ | <input type="checkbox"/> Père <input type="checkbox"/> Mère <input type="checkbox"/> Autre : _____ |
| 7. Date de naissance | ____ / ____ / ____ (aaaa) (mm) | ____ / ____ / ____ (aaaa) (mm) |
| 8. Nombre d'années de scolarités complétées | ____ années | ____ années |
| 9. Occupation principale | <input type="checkbox"/> Travail rémunéré : _____ <input type="checkbox"/> Études : _____ <input type="checkbox"/> Autre : _____ | <input type="checkbox"/> Travail rémunéré : _____ <input type="checkbox"/> Études : _____ <input type="checkbox"/> Autre : _____ |

10. Combien d'enfants vivent sous le même toit que le participant à l'étude (incluant le participant à l'étude)? ____ enfants

11. Quel âge ont les autres enfants qui vivent sous le même toit?

- 11.1. Enfant 1 : _____ ☐ Non applicable
 11.2. Enfant 2 : _____ ☐ Non applicable
 11.3. Enfant 3 : _____ ☐ Non applicable
 11.4. Enfant 4 : _____ ☐ Non applicable
 11.5. Enfant 5 : _____ ☐ Non applicable
 11.6. Enfant 6 : _____ ☐ Non applicable

12. Quel est, approximativement, votre revenu familial net annuel?

- ☐ Moins de 15 000\$
☐ Entre 15 000\$ et 39 999\$
☐ Entre 40 000\$ et 64 999\$
☐ Entre 65 000\$ et 89 999\$
☐ Entre 90 000\$ et 114 999\$
☐ 115 000\$ ou plus

☐ Je ne veux pas répondre à cette question

Conditions associées

13. Votre enfant a-t-il déjà présenté votre médecin vous a-t-il déjà mentionné que votre enfant présentait un ou plusieurs des affections ou diagnostics suivants? Veuillez placer un crochet (✓) dans la case appropriée.

| | | OUI | NON | Moment |
|----|---|-----|-----|--------|
| 1 | Épilepsie | | | |
| 2 | Trouble visuel (non compensé par le port de lunettes) | | | |
| 3. | Trouble auditif (difficulté importante à entendre malgré des prothèses auditives) | | | |

L'enfant présente-t-il :

- Problème visuel? ☐ Oui ☐ Non
- Problème auditif? ☐ Oui ☐ Non
- Épilepsie non contrôlée? ☐ Oui ☐ Non

14. Avez-vous déjà présenté ou votre médecin vous a-t-il déjà mentionné que vous présentiez un ou plusieurs des affections ou diagnostics suivants? Veuillez placer un crochet (✓) dans la case appropriée.

| | | OUI | NON | Moment |
|---|---|-----|-----|--------|
| 1 | Trouble visuel (non compensé par le port de lunettes, par exemple : cataractes, glaucome, dégénérescence maculaire) | | | |
| 2 | Trouble auditif (difficulté importante à entendre malgré des prothèses auditives) | | | |
| 3 | Dépression | | | |
| 4 | Anxiété ou épisodes de panique | | | |
| 5 | Autre trouble psychiatrique : _____ | | | |

☐ Je ne veux pas répondre à cette question

Le parent présente-t-il :

- Problème visuel? ☐ Oui ☐ Non
- Problème auditif? ☐ Oui ☐ Non
- Trouble psychiatrique sévère? ☐ Oui ☐ Non

Annexe 2

Échantillon du journal de bord

Code: _____

JOURNAL DE BORD QUOTIDIEN

Veillez, s'il vous plaît, indiquer quotidiennement les **activités** (et leur **durée**) durant lesquelles vous étiez en interaction avec votre enfant et pendant lesquelles vous avez utilisées une ou des stratégie(s) du programme d'accompagnement parental

Si vous le désirez, vous pouvez inscrire des commentaires dans la case correspondante. Il sera possible de revenir sur certaines difficultés ou questions que vous avez relevées au cours de la semaine lors de la prochaine rencontre.

Merci de rapporter ce document complété lors de la prochaine rencontre.

[illegible]

Annexe 3

Grille des services reçus

Date (aaaa/mm/jj) : ____ / ____ / ____

Code: _____

☐ T1 ☐ T2 ☐ T3 ☐ T4

GRILLE DES SERVICES REÇUS

Pour répondre à ce questionnaire, référez-vous aux services reçus au cours des 3 derniers mois en lien avec les difficultés vécues par votre enfant participant à l'étude. Veuillez inscrire si vous avez utilisé les services énumérés ci-dessous. Pour les services que vous avez utilisés au cours des 3 derniers mois pour votre enfant, veuillez préciser le nombre de fois et la durée moyenne de l'utilisation de ce service.

Exemple : Un enfant a participé à des séances d'orthophonie (services privés) de 60 minutes une fois par semaine pendant 10 semaines au cours des 3 derniers mois.

| | 1. Avez-vous utilisé ce service au cours des 3 derniers mois ? | 2. Si vous avez utilisé ce service : Combien de fois avez-vous utilisé ce service ? | 3. Si vous avez utilisé ce service : Quel était la durée moyenne du service reçu ? |
|---------------------------|--|---|--|
| 5. Services privés | | | |
| 5.5 Orthophonie | o Non <input checked="" type="checkbox"/> Oui | <div style="display: flex; align-items: center;"> <div style="text-align: center; width: 50px;"> <u>10</u> </div> <div> o par semaine o par mois <input checked="" type="checkbox"/> au total </div> </div> | <div style="display: flex; align-items: center;"> <div style="text-align: center; width: 50px;"> <u>1</u> </div> <div> o en minutes <input checked="" type="checkbox"/> en heure(s) </div> </div> |

Grille des services reçus

1

| | A. Avez-vous utilisé ce service au cours des 3 derniers mois ? | | B. Si vous avez utilisé ce service : Combien de fois avez-vous utilisé ce service ? | C. Si vous avez utilisé ce service : Quel était la durée moyenne du service reçu ? |
|---|--|---------------------------|--|--|
| 1. Centre hospitalier | | | | |
| 1.1 Centre de jour | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 1.2 Services de pédopsychiatrie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 1.3 Autres (spécifiez) : _____ | | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 2. Centre de réadaptation en déficience intellectuelle et troubles envahissants du développement | | | | |
| 2.1 Stimulation précoce | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 2.2 Soutien dans les milieux de vie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 2.3 Intervention comportementale intensive | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |

Grille des services reçus

| | 1. Avez-vous utilisé ce service au cours des 3 derniers mois ? | | 2. Si vous avez utilisé ce service : Combien de fois avez-vous utilisé ce service ? | 3. Si vous avez utilisé ce service : Quel était la durée moyenne du service reçu ? |
|---|--|---|--|--|
| 2. Centre de réadaptation en déficience intellectuelle et troubles envahissants du développement (suite) | | | | |
| Services professionnels personnalisés | 2.4 Psychoéducation | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 2.5 Psychologie | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 2.6 Neuropsychologie | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 2.7 Orthophonie | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 2.8 Ergothérapie | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 2.9 Autres (spécifiez): _____ | <input type="text"/> | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 3. Centre de santé et de services sociaux | | | | |
| | 3.1 Services psychosociaux | <input type="radio"/> Non <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| | 3.2 Autres (spécifiez) : _____ | <input type="text"/> | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |

Grille des services reçus

| | 1. Avez-vous utilisé ce service au cours des 3 derniers mois ? | | 2. Si vous avez utilisé ce service : Combien de fois avez-vous utilisé ce service ? | 3. Si vous avez utilisé ce service : Quel était la durée moyenne du service reçu ? |
|-----------------------------------|--|---------------------------|--|--|
| 4. Services communautaires | | | | |
| 4.1 Services de répit | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 4.2 Services de gardiennage | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 4.3 Autres (spécifiez) : _____ | | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5. Services privés | | | | |
| 5.1 Ergothérapie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5.2 Psychologie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5.3 Neuropsychologie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5.4 Psychoéducation | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5.5 Orthophonie | <input type="radio"/> Non | <input type="radio"/> Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |

Grille des services reçus

| | 1. Avez-vous utilisé ce service au cours des 3 derniers mois ? | 2. Si vous avez utilisé ce service : Combien de fois avez-vous utilisé ce service ? | 3. Si vous avez utilisé ce service : Quel était la durée moyenne du service reçu ? |
|-----------------------------------|--|--|--|
| 5. Services privés (suite) | | | |
| 5.6 Physiothérapie | o Non o Oui | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 5.7 Autres (spécifiez): _____ | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 6. Autres services | | | |
| 6.1 Autres (spécifiez) : _____ | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 6.2 Autres (spécifiez) : _____ | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 6.3 Autres (spécifiez) : _____ | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| 6.4 Autres (spécifiez) : _____ | | <input type="text"/> o par semaine <input type="text"/> o par mois <input type="text"/> o au total | <input type="text"/> o en minutes <input type="text"/> o en heure(s) |
| Grille des services reçus | | | |

Annexe 4

Guide d'entrevue

But de l'entrevue

Le but de cette dernière rencontre est de mieux comprendre comment vous avez trouvé le programme d'intervention, de collecter vos commentaires sur le programme et de recevoir vos suggestions.

Gardez en tête que cet entretien a comme objectif principal d'adapter ou d'améliorer le programme d'intervention. Personne n'est mieux placé que vous pour nous partager ce que vous avez vécu pendant le projet.

N'oubliez pas, il n'y a pas de bonnes ou de mauvaises réponses. Plus vous êtes honnête et sincère face au programme d'intervention, plus cela va nous être utile.

Thèmes à aborder

- Vécu personnel pendant le déroulement de l'expérience
- Perception de la pertinence du programme
- **Impacts positifs** du programme sur...
 - le parent
 - l'enfant
 - la famille
- **Impacts négatifs** du programme sur...
 - le parent
 - l'enfant
 - la famille
- Aspects les plus appréciés du programme
- Aspects à **améliorer**, besoins non-répondus
- Suggestions pour l'amélioration du programme

Question d'ouverture

- Comment avez-vous trouvé le programme d'intervention auquel vous avez participé?

Autres questions

- Approfondissement
 - Pouvez-vous m'en dire plus ?
 - Que voulez-vous dire?
 - Vous souvenez-vous d'un moment où _____? Pouvez-vous me donner un exemple?
- Émotion, vécu
 - Comment vous-êtes vous senti ?
 - Quelle a été votre réaction?

Autres techniques de facilitation

- Silence
- Répéter la même question
- Reformulation
 - De la question
 - Des propose du répondant
- Reprendre les derniers mots dits par le répondant